



Journal of

Clinical and Analytical Medicine

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 4 Supplement 2 April 2013

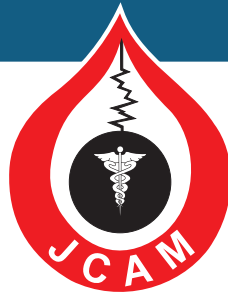
Laparoscopy-Assisted Cystectomy: Management of a Large Ovarian Cyst with Torsion

E. Üstünyurt, M. Duran



Contents;

- Primary Sjogren's Syndrome Associated with Basal Cell Carcinoma: Case Report
- Laparoscopy-Assisted Cystectomy: Management of a Large Ovarian Cyst with Torsion
- Invagination Associated with Ileocecal Duplication Cyst: A Case Report
- Forgotten Surgical Needle in the Anterior Abdominal Wall: A Case Report
- Reanastomosis with Stapler in Duodenojejunal Junction Anastomosis Leakage: A Case Report
- Phantom Extremity Pain Responding to Stellate Ganglion Blockage: Case Report
- Endoscopic Removal of the Tooth Brush Which Was Impacted in Stomach: Case Report
- A Complication That Can Be Faced After Embolectomy: Drug Caused Coagulation Problem
- Munchausen Syndrome: A Case with Presenting Sudden Hearing Loss
- Doc! Where are My Legs? Leriche Syndrome Case Report
- MRI Findings of Congenital Bilateral Lacrimal Gland Agenesis in a Patient with Blepharophimosis Syndrome
- Late Onset Subacute Sclerosing Panencephalitis: Presenting Psychosis



Journal of

Clinical and Analytical Medicine

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 4 Supplement 2 April 2013

DERGİ

Journal of Clinical and Analytical Medicine

(Kısa Başlık: J Clin Anal Med)

Kartaltepe Mahallesi, Atatürk Bulvarı, Belediye İşhanı, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye.
GSM: +905303042583 • F.: +90 3128761089 • www.jcam.com.tr • info@jcam.com.tr

Yayıncı

Derman Tıbbi Yayıncılık

Kartaltepe Mh. Atatürk Cd. No: 9/9,
Bala, Ankara, Türkiye.
T.: +90 3128761089
E-posta: info@jcam.com.tr

Editör

Orhan Yücel

GATA Göğüs Cerrahisi. AD.
06118, Etlik, Ankara.
T.: +905303042583
E-posta: editor@jcam.com.tr

Sekreter

Ülker Bora, Jim Morgan

Kartaltepe Mh, Atatürk Cad.
No: 9/9, Bala, Ankara.
T.: +90 3123045188
E-posta: secretary@jcam.com.tr

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi, tıbbın her dalı ile ilgili retrospektif, prospektif veya deneysel çalışmaları, ilginç olgu bildirimlerini, davet üzerine yazılan derlemeleri, editöre mektupları, orijinal görüntüleri, kongre, kurs, seminer, haber ve duyuruları, ilginç araştırmaların özetlerini ve güncel tıp gündemindeki konuları yayınlar. Yayıncılar, reklamı verilen ticari ürünlerin açıklamaları konusunda hiçbir garanti vermemekte ve konuyla ilgili sorumluluk kabul etmemektedir. Dergi yılda 6 sayı olarak Ocak, Mart, Mayıs, Temmuz, Eylül ve Kasım aylarında yayınlanmaktadır. Yazıların bilimsel sorumluluğu yazarlara aittir.

Journal of Clinical and Analytical Medicine publishes every branch of medicine concerned with the retrospective, prospective or experimental studies, interesting case reports, invited reviews, letters to the editor, original images, congress, course, seminar, news item and declaration, brief reports on original studies, and current medical issues in the agenda. Publishers do not give any guarantees about description of the commercial product and do not accept responsibility for the subject. The journal is published six times in a year and in January, March, May, July, September ve November. The author(s) undertake(s) all scientific responsibility for the manuscript.

JCAM İndekslediği Dizinler / Indexes

Embase; Index DOAJ, EMBASE, SCOPUS, Index Copernicus, Pleksus Medline, TÜBİTAK ULAKBİM, Türkiye Atıf Dizini

Matbaa/Yayınevi/Satış/Dağıtım: Derman Tıbbi Yayıncılık, Kartaltepe Mah, Atatürk Cad, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye. T.: +90 3128761089 • F.: +90 3128761089 • E-Mail: info@jcam.com.tr • Basım Tarihi/Press Data: 01.09.2013

**Editör / Editor**

Orhan Yücel, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

Bölüm Editörleri / Section Editors

Ali Sızlan, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Fatih Zor**, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Hakan Şimşek**, Neurosurgery, Kasımpaşa Military Hospital, İstanbul, Turkey, **Mustafa Burak Hoşcan**, Urology, Başkent University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey

Yardımcı Editörler / Associate Editors

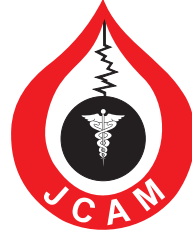
Akın Yıldızhan, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Burçin Çelik**, Thoracic Surgery, 19 Mayıs University Medical School, Samsun, Turkey, **Didem Sonbay**, Otolaryngology, Antalya Selale Private Medical Center, Antalya, Turkey, **Mürüvvet Seda Balaban**, Hacettepe University Faculty of Medicine, Department of Internal Medicine, Ankara, Turkey, **Oğuzhan Okutan**, Pulmonary Medicine, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Ömer Gökhan Doluoğlu**, Urology, Ankara Numune Education and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Sezai Çubuk**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

Uluslararası Danışma Kurulu / International Editorial Board

Abramson Horacio, Thoracic Surgery, Universidad de Buenos Aires Buenos Aires, Argentina, **Carla Lamb**, Pulmonology, Critical Care Medicine, Lahey Clinic, Burlington, USA, **Frank-Martin Haecker**, Pediatric Surgery, University Children's Hospital, Basel, **Hans K. Pilegaard**, Cardiothoracic Surgery, Aarhus University Hospital, Denmark, **Hayati Bilgiç**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Hyung Joo Park**, Thoracic and Cardiovascular Surgery, Korea University Medical Center, Korea, **Onur Genç**, Turkish Religious Foundation 29 Mayıs Private Hospital, Ankara, Turkey, **Peter Goldstraw**, Thoracic Surgery, National Heart and Lung Institute, Imperial College, London, UK, **Richard W. Light**, Pulmonary Disease, and Critical Care Med., Vanderbilt University, Tennessee, USA, **Semra Bilaçeroğlu**, Pulmonary Medicine, Izmir Training and Research Hospital for Thoracic Medicine and Surgery, Turkey, **Shahinur Rahman**, Thoracic Surgery, Combined Military Hospital, Dhaka, Bangladesh, **Yoshiya Toyoda**, Cardiothoracic Surgery, University of Pittsburgh Physicians, Pittsburgh, USA, **Yusuf Peker**, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

Danışma Kurul / Editorial Board

Ali Kılıçgün, Thoracic Surgery, Abant İzzet Baysal University Faculty of Medicine, Bolu, Turkey, **Alper Gözübüyük**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ayşe Eken**, Pharmaceutical Toxicology, Erciyes University, Pharmacy Faculty, Kayseri, Turkey, **Basar Sareyyupoglu**, Cardiothoracic Surgery, TAMHSC College of Medicine, Texas, USA, **Bülent Karaman**, Radiology, Gulhane Military Medical School, Ankara, Turkey, **Cantürk Taşçı**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Celalettin Sever**, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Ergün Tozkoparan**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ergün Uçar**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Erkan Vuralkan**, Otolaryngology, Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Hasan Çaylak**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **İbrahim Yetim**, General Surgery, Mustafa Kemal University, Faculty of Medicine, Hatay, Turkey, **Makbule Ergin**, Thoracic Surgery, Gaziosmanpaşa University School of Medicine, Tokat, Turkey, **Mehmet Dakak**, Thoracic Surgery, TOBB ETÜ Hospital, Ankara, Turkey, **Mehmet Gamsızkan**, Pathology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Mehmet Zeki Günlüoğlu**, Thoracic Surgery, İstanbul Medipol University, Medical Faculty, İstanbul, Turkey, **Muharrem Erol**, Thoracic Surgery, Bursa University Faculty of Medicine, Bursa, Turkey, **Mustafa Tansel Kendirli**, Neurology, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Murat Tavlaşoğlu**, Cardiovascular Surgery, Diyarbakir Military Medical Hospital, Diyarbakir, Turkey, **Murat Ünlü**, Cardiology, Beytepe Military Hospital, Ankara, Turkey, **Nazif Zeybek**, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ömer Deniz**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Pınar Bıçakcıoğlu**, Thoracic Surgery, Atatürk TRH for Chest Disease and Chest Surgery, Ankara, Turkey, **Sait Demirkol**, Cardiology, School of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Sedat Gürkök**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Selahattin Bedir**, Urology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Seyfettin Gümüş**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ülkü Yazıcı**, Thoracic Surgery, Atatürk Chest Diseases and Chest Surgery ERH, Ankara, Turkey, **Yusuf Sinan Şirin**, Surgery, Faculty of Veterinary Medicine, Ankara University, Ankara, Turkey, **Zekeriya Arslan**, Cardiology, School of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Zeki İlker Kunak**, Medical CBRN Defense, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey



İçindekiler (Table of Contents)

Olgu Sunumu / Case Report

111-113	Bazal Hücreli Karsinom ile İlişkili Primer Sjögren Sendromu: Olgu Sunumu Primary Sjogren's Syndrome Associated with Basal Cell Carcinoma: Case Report Tuğba Aktan Köşker, Şükran Erten, Hayriye Tatlı Doğan
114-116	Dev Hiperplastik Polibe Bağlı Akut Gastrik Kanama Acute Gastric Bleeding Due to Giant Hyperplastic Polyp Bulent Aksel, Lutfi Dogan, Salim Demirci, Ali Ekrem Unal, Hikmet Akgul
117-119	Romatoid Artritli Hastada Plevral Efüzyon ve Ayırıcı Tanı Pleural Effusion and Differential Diagnosis in a Patient with Rheumatoid Arthritis Jülide Çeldir Emre, Ayşegül Baysak, Ümit Aksoy, Adnan Tolga Öz, Nigar Dirican
120-122	Laparoskopik Asiste Kistektomi: Torsiyone Olmuş Büyük bir Over Kistinin Yönetimi Laparoscopy-Assisted Cystectomy: Management of a Large Ovarian Cyst with Torsion Emin Üstünyurt, Müzeyyen Duran
123-125	Sakrokoksigeal Teratom Olgusunun Prenatal Tanısında 2 ve 3 Boyutlu Ultrasonografinin Kullanımı: Olgu Sunumu The Usage of 2 and 3-Dimensionel Ultrasound in Prenatal Diagnosis of Sacrococcygeal Teratoma: Report of a Case Fatma Uysal, Gürhan Adam, Mustafa Reşorlu, Serçin Baş, Ahmet Uysal
126-128	Rektus Abdominis Kası Yerleşimli Endometriozis: Olgu Sunumu Endometriosis in the Rectus Abdominis Muscle: A Case Report Taşçı Yasemin, Gelişen Orhan, Düzgüner Soner, Gökçin Hakan, Balin Ipek Nur
129-131	Nadir Görülen Eş Zamanlı İntramiyokardiyal ve Akciğer Yerleşimli Alveolar Ekinokokkus: Olgu Sunumu Unusual Presentation of Alveolar Echinococ with Simultane Intramyocardial and Lung: Case Report Bayram Metin, Hüseyin Ede, Yavuz Selim İntepe, Hasan Ekim, Nezih Yılmaz, Esef Bolat, Şener Yıldırım
132-134	Çocukta Geç Tespit Edilen İzole Travmatik Pnömomediastinum: Olgu Sunumu Late Onset Isolated Traumatic Pneumomediastinum in a Child: A Case Report Ali Kemal Erenler, Latif Duran, Soner Dağlı, Özkan Öztürk, Oya Yıldız
135-137	İleoçekal Duplikasyon Kistine Bağlı Gelişen İnvajinasyon; Bir Olgu Sunumu Invagination Associated with Ileocecal Duplication Cyst: A Case Report Şirin Başpınar, Nermin Karahan, Mustafa Çelik, Olga Koçkar
138-141	Primer Testis Lenfomasi: İki Olgu Sunumu Primary Testicular Lymphoma: Two of Case Reports Recep Bedir, İbrahim Şehitoğlu, Afşin Rahman Mürtezaoğlu, Muhammed Yaytokgil, Hakkı Uzun
142-144	Kemik Sintigrafisinde Polikondrit Benzeri Bulgu Veren Kartilaj Kalsifikasyonu Cartilage Calcification Mimics Polychondritis in Bone Scintigraphy Hasan İkbāl Atılğan, Murat Sadıç, Meliha Korkmaz, Sezgin Karasu, Arif Osman Tokat
145-147	Akut Üriner Retansiyonun Nadir Bir Nedeni: Retroperitoneal Ganglionöroma ve Eş Zamanlı Görülen Mediastinal Schwannoma A Rare Cause of Acute Urinary Retention: Retroperitoneal Ganglioneuroma and Concurrent Mediastineal Schwannoma Salih Budak, Muzaffer Yılmaz, Hüseyin Aydemir, Osman Köse, Fatma Hüsnüye Dilek, Öztuğ Adsan
148-150	Üst Toraks da Alışılmadık Bezold Apse Olgusu A Case of Bezold's Abscess with an Unusual Extension to the Upper Thorax Reza Javad Rashid, Masood Naderpour, Afshin Habibzadeh, Javad Jalili, Maryam Mozayyan
151-153	Batın Ön Duvarında Unutulan Cerrahi İğne: Olgu Sunumu Forgotten Surgical Needle in the Anterior Abdominal Wall: A Case Report Ali Akdemir, Deniz Şimsek, Ahment Özgür Yeniel, Celal Çınar, Ahmet Mete Ergenoğlu
154-156	İnkontinensiya Pigmenti: Bir Olgu Sunumu Incontinentia Pigmenti: A Case Report İlkur Balta, Emine Ünal, Erdem Vargöl, Dilek Sarıcı, Adem Yasin Köksoy
157-159	Duodenojejunal Bileşke Anastomoz Kaçağında Stapler ile Reanastomoz: Vaka Sunumu Reanastomosis with Stapler in Duodenojejunal Junction Anastomosis Leakage: A Case Report Ahmet Seker, Resit Ciftci, İrfan Eser, Alpaslan Terzi, Ali Uzunkoy, Yusuf Yucel
160-162	Depresif Duygu Durum Bozukluğu Olan Bir Hastada Amitriptilin ile Tekrarlayan Özkıym Girişimi Recurrent Suicide Attempt With Amitriptyline in a Patient with Depressive Mood Disorder Hızır Ufuk Akdemir, Pınar Henden, Şahin Çolak, Latif Duran, Celal Katı
163-166	Geç Diyafragma Hernisi Nedeniyle Kardiyak Arrest Gelişen Olgu A Case of Cardiac Arrest Due to Late Diaphragm Hernia Duygu Mergan İliklerden, Ümit İliklerden, Ufuk Çobanoğlu
167-168	Stellat Ganglion Blokajına Yanıt Veren Fantom Ekstremit Ağrısı: Olgu Sunumu Phantom Extremity Pain Responding to Stellate Ganglion Blockage: Case Report Edip Gönüllü, Yüksel Erkin, AydınTaşdoğan, Hayriye Gönüllü, Lokman Soyoral
169-171	Nevoid Melanom: Olgu Sunumu Nevoid Melanoma: A Case Report Esra Karakuş, Özgür Ekinci, Özlem Erdem, Ömer Uluoğlu
172-174	Mideye İmpakte Olmuş Diş Fırçasının Endoskopik Olarak Çıkarılması: Olgu Sunumu Endoscopic Removal of the Tooth Brush Which Was Impacted in Stomach: Case Report Fevzi Cengiz, Erkan Oymacı, Baha Zengel, Nazif Erkan, Mehmet Yıldırım
175-177	Dev Mediastinal Teratom Giant Mediastinal Teratoma İlkay Albayrak, Taner Tarladaçalışır, Selçuk Köse, Sedat Koçal
178-180	Opere Akciğer Karsinoid Tümör Olgusunda İkinci Primer Nöroendokrin Tümör: Küçük Hücreli Akciğer Karsinomu Second Primary Neuroendocrine Tumor in a Patient Operated Because of Lung Carcinoid Tumor: Small Cell Lung Cancer Jülide Çeldir Emre, Ayşegül Baysak, Gürsel Çok, Deniz Nart, Ufuk Çağırıcı

181-183	Embolektomi Sonrası Yaşanabilecek Bir Komplikasyon: İlaç Nedenli Koagülasyon Problemi A Complication That Can Be Faced After Embolectomy: Drug Caused Coagulation Problem Erdal Şimşek, Aytaç Çalışkan, Başak Soran, Ufuk Tütün
184-186	İzole ve Klippel-Feil Sendromuna Eşlik Eden Ayna Hayali Hareketi Olan İki Olgu Sunumu Mirror Movement in an Isolated Case and in a Case with Klippel-Feil Syndrome Mehmet Canpolat, İlknur Çelik, Selim Doganay, Hakan Gumus, Hüseyin Per
187-189	Ottawa Kriterlerinin Yetersiz Kaldığı Nadir Bir Kırık: İzole Posterior Malleol Kırığı A Rare Fracture That Ottawa Ankle Rules are Insufficient: Isolated Posterior Malleolar Fracture Bülent Karslıoğlu, Yusuf Emrah Eyi, Salim Kemal Tuncer, Yusuf Erdem, Ali Osman Yıldırım
190-193	Çocukluk Döneminde Ortaya Çıkan Restriktif Kardiyomiyopati: Olgu Sunumu Restrictive Cardiomyopathy in Childhood: Case Report Osman Güvenç, Derya Arslan, Derya Çimen, Mustafa Koplay, Bülent Oran
194-195	Munchausen Sendromu: Ani İşitme Kaybı ile Başvuran İki Hasta Munchausen Syndrome: A Case with Presenting Sudden Hearing Loss Murat Ozturk, Fatih Sari, Selvet Erdogan, Fatih Mutlu
196-198	Fetal Ölümüne Neden olan Nadir Bir Kombinasyon: İzole Tek Umbilikal Arter ve Uzun Umbilikal Kord A Rare Combination Causing Fetal Demise: Isolated Single Umbilical Artery and Long Umbilical Cord Selen Dogan, Ozgur Ozyuncu, Gurkan Bozdogan
199-201	Behçet Üveitinde İnterferon Alfa 2A Tedavisi ile İlişkili Eritema Multiforme Olgusu A Case of Erythema Multiforme Related to Interferon Alpha 2A Treatment for Behçet Uveitis Ercan Karabacak, Ersin Aydın, Evren Gökeşme, Bilal Doğan
202-204	Doktor! Bacaklarım Nerede? Leriche Sendromu Olgusu Doc! Where are My Legs? Leriche Syndrome Case Report Birdal Güllüpinar
205-207	Portal Hipertansiyon ile İlişkili Erişkin Form Gaucher Hastalığı: Olgu Sunumu An Adult Form of Gaucher Disease Associated with Portal Hypertension: A Case Ahmet Cumhuri Dülger, Sevdegül Karadaş, Hayriye Gönüllü, Bilge Gültepe, Mehmet Taşdemir
208-210	Trombositopeni ve Anemiye Neden olan Dalağın Dev Kavernöz Hemanjiomu Giant Cavernous Haemangioma of the Spleen Causing Thrombocytopenia and Anemia Güvenç Diner, Orhan Veli Özkan, Muzaffer Yıldırım, Yasemin Gündüz, Ömer Yalkın
211-213	Hemodiyalize Giren Hastada Diffüz Miyokardiyal Tc99m HDP Tutulumu: Nadir Bir Olgu Diffuse Myocardial Tc99m HDP Uptake in a Hemodialysis Patient: A Rare Case Murat Sadıç, Hasan İkbal Atılğan, Gökhan Koca, Koray Demirel, Meliha Korkmaz
214-216	Blefarofimozis Sendromlu Bir Hastada Konjenital Bilateral Lakrimal Gland Agenezisinin MRG Bulguları MRI Findings of Congenital Bilateral Lacrimal Gland Agenesis in a Patient with Blepharophimosis Syndrome Harun Arslan, Metin Saylık
214-216	Blefarofimozis Sendromlu Bir Hastada Konjenital Bilateral Lakrimal Gland Agenezisinin MRG Bulguları MRI Findings of Congenital Bilateral Lacrimal Gland Agenesis in a Patient with Blepharophimosis Syndrome Harun Arslan, Metin Saylık
220-222	Psikoz ile Prezente olan Geç Başlangıçlı Subakut Sklerozan Panensefalit Late Onset Subacute Sclerosing Panencephalitis: Presenting Psychosis Yavuz Altunkaynak, Zerrin Yıldırım, Devrimsel Harika Ertem, Ayten Ceyhan Dirican, Sevim Baybaş



Primary Sjogren's Syndrome Associated with Basal Cell Carcinoma: Case Report

Bazal Hücreli Karsinom ile İlişkili Primer Sjögren Sendromu: Olgu Sunumu

Sjögren Sendromu ve Malignite / Sjogren's Syndrome and Malignancy

Tuğba Aktan Köşker¹, Şükran Erten², Hayriye Tatlı Doğan³

¹Ankara Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İç Hastalıkları,

²Yıldırım Beyazıt Üniversitesi ve Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Romatoloji,

³Ankara Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji, Ankara, Türkiye

Özet

Sjögren sendromu, 'sicca semptomları' olarak bilinen ağız kuruluğu ve göz kuruluğu ile karakterize kronik otoimmün bir hastalıktır. Sjögren sendromu hastalarında, ekzokrin bezlerin lenfositik infiltrasyonu nedeniyle, karakteristik olarak nükleer ve sitoplazmik antijenler, özellikle Anti-Ro/SSA ve Anti-La/SSB pozitifdir. Primer Sjögren sendromunda sistemik komplikasyonlar gelişebilir, ki bunlardan en korkulanı non-Hodgkin lenfomadır. Biz burada, burun sırtında ülser lezyon ile presente olan bazal hücreli karsinom ile birlikte olan Sjögren sendromu olgusundan bahsettik.

Anahtar Kelimeler

Sjögren Sendromu; Bazal Hücreli Karsinom; Malignite

Abstract

Sjogren's syndrome is a chronic autoimmune disease characterized by xerostomia and xerophthalmia, known as the 'sicca symptoms'. Patients with Sjogren's syndrome, characteristically have positive nuclear and cytoplasmic antigens, typically Anti-Ro/SSA and Anti-La/SSB because of lymphocytic infiltration of the exocrine glands. Patients with primary Sjogren's syndrome, develop systemic complications, non-Hodgkin lymphoma being the most feared of these. We describe here a case of Sjogren's syndrome with basal cell carcinoma, which presented with an ulcerated lesion on nasal dorsum.

Keywords

Sjogren's Syndrome; Basal Cell Carcinoma; Malignancy

DOI: 10.4328/JCAM.2030

Received: 22.08.2013 Accepted: 15.09.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 111-3

Corresponding Author: Tuğba Aktan Köşker, Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İç Hastalıkları Kliniği, Bilkent Yolu 3. Km. 06800, Çankaya, Ankara, Türkiye.

T.: +90 3122912525-4804 F.: +90 3122912705 E-Mail: tubaaktan@hotmail.com

Introduction

There has been known association of rheumatic disease with malignancy for many years. Autoimmune rheumatic diseases have a higher risk of malignancy by themselves. Also, they may be associated with malignancy as paraneoplastic conditions or because of the immunosuppressant treatments. It has been shown that there is an increased risk of haematological malignancies, particularly non-Hodgkin's lymphoma and lymphoma of mucosal-associated lymphoid tissue (MALT), in patients with SS.

We describe the first case of Sjögren's syndrome with BCC in a 45-year-old woman. As with other malignancies, SS may be associated with BCC.

Case Report

A 45-year-old woman visited the outpatient department in our hospital in November 2008 presenting with artralgia, xerostomia and xerophthalmia. Her tenderness was widespread in all the joints of metacarpophalangeal, wrists, elbows and shoulders.

Serological tests revealed positive antinuclear antibody (ANA) of 1:100 (homogeneous) and elevated C-reactive protein (CRP). But other serological tests were negative for anti-Ro (SS-A), anti-La (SS-B), antibodies against DNA, ribonucleoproteins (RNP), Sm and antineutrophil cytoplasmic antibodies. All of the other blood levels were normal.

A minor salivary gland biopsy showed focal lymphocytic infiltration (an area of 4 mm² in size, 2 and more focus, and each in focus, more than 50 lymphocyte) and an ophthalmological examination demonstrated a positive Schirmer's test of <5mm bilateral. These findings were consistent with a diagnosis of primary SS.

Low-dose methyl prednisone and hydroxychloroquine therapy were given at that time. After the symptoms were controlled, methyl prednisolone was discontinued and patient was treated with only hydroxychloroquine.

During the past 4 years, the patient started to complain about an ulcerated lesion on nasal dorsum, rapidly growing for the last 6 months. Examination revealed an ulcerated tumor, measuring about 0.5 cm in diameter with elevated borders, on the nasal dorsum. Its surface was irregular and was the same color as the skin. There were no enlarged lymph nodes on her examination and her general physical condition was stable.

Skin biopsy was performed on December 2012 and the patient was diagnosed with BCC. (Figure 1). The patient was taken up for a complete resection of the lesion, involving a 0.5 cm safe margin. The site of the defect was reconstructed using a dorsonasal flap.

Discussion

Sjögren's syndrome (SS) is an autoimmune disease of the exocrine glands, characterized by lymphocytic infiltration of salivary and lacrimal glands which causes the progressive destruction of these glands, and by the production of autoantibodies [1]. It preferentially affects the exocrine glands, causing structural harm to these organs that results in secretory dysfunction. Dryness of the eyes (xerophthalmia leading to keratoconjunctivitis sicca) and mouth (xerostomia) constitute the typical clinical

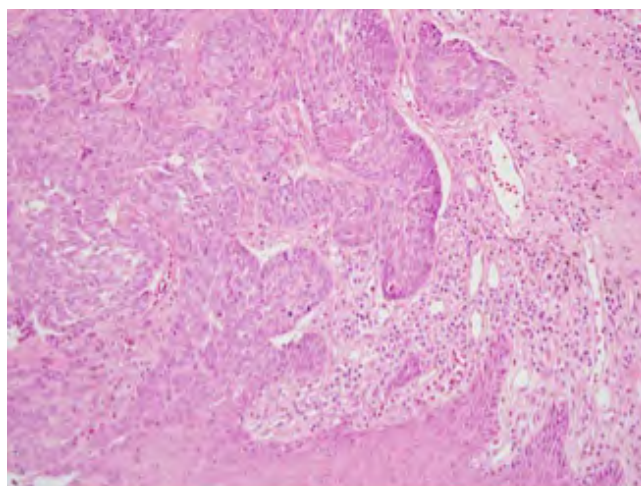


Figure 1. Basal cell carcinoma with peripheral palisading basaloid cells in nasal dorsum

cal components of the syndrome [2].

Patients with SS characteristically have high levels of immunoglobulins, nuclear and cytoplasmic antigens, typically Anti-Ro/SSA and Anti-La/SSB. These autoantibodies are usually detected at the time of diagnosis and are related to early disease onset, longer disease duration and extraglandular manifestations. SS is more common in fourth and fifth decades. It commonly affects females, with 9:1 female: male ratio [3].

There has been known the association of rheumatic disease with malignancy for many years, but the explanation of this association remains unclear [4]. Several factors, including autoimmune disease itself, genetics factors, viruses (EBV) and smoking have been implicated in the pathogenesis of tumor development. On the other hand, they may be associated with malignancy as paraneoplastic conditions or because of the immunosuppressant treatments [5].

There are many studies which demonstrate that there is an increased risk of malignancies, particularly non-Hodgkin's lymphoma in patients with rheumatoid arthritis, lung cancer in patients with systemic sclerosis, who have underlying pulmonary fibrosis [4]. In patients with SS, lymphoproliferative diseases, mostly non-Hodgkin's lymphoma; more rarely, Waldenstrom macroglobulinemia, chronic lymphocytic leukemia and multiple myeloma have been reported [5].

The risk of developing non-Hodgkin's lymphoma in patients with SS is approximately 40–44 times greater than that in the general population [2]. As with other malignancies, SS may be associated with BCC. Here, we reported a case of SS with BCC, which has not been documented before.

BCC is the most common cutaneous tumor, accounting for approximately 70% of all malignant diseases of the skin [6]. BCC occurs frequently in the head-and-neck regions (%80), common sites of occurrence include the nose and eyelid. In addition, BCC exhibits a varied morphology such as adenoid, keratotic, sebaceous, basosquamous or fibroepithelial.

Its well-known etiologic factors include excessive exposure to radiation- especially ultraviolet (UV) exposure, arsenal exposure, pollution (effects of preservatives in food, artificial and natural radiation and cigarette smoke) and genetic predisposition. [7]

Immunohistochemistry, with clinical findings, helps to reach an

accurate diagnosis. Surgical excision has been considered the gold standard of treatment. For primary tumors not involving the head, surgical excision is generally curative with 5-year cure rates of more than 99% [8]. This cancer is characterized by the slow growth and it is well known that metastasis is relatively rare (less than 0.01% of cases) [6].

While the lifetime risk of basal cell carcinoma is high, for patients with metastatic disease, morbidity and mortality remain exceedingly high. The most important risk factors for metastasis are tumor size, depth, and recurrence. Primary basal cell carcinoma metastasizes usually via lymphatics. Metastasis most commonly occurs in regional lymph nodes, lungs, and bone [8]. In conclusion, rheumatic diseases have been associated with various malignancies. In patients with rheumatoid diseases, chronic inflammation is believed to be a major risk factor for the development of neoplasm [5]. Recognizing that a relationship between malignancy and rheumatic diseases is important to our future understanding of the pathogenesis. In this report, we encountered the first case of SS complicated with BCC. We recommend that patients with SS be carefully evaluated for other malignancies, and besides lymphoma, BCC should also be kept in mind. A special attention must be given to atypical symptoms, in patients with SS.

Therefore, it is necessary to monitor patients with SS for the onset of the other malignancies and prospective studies are necessary to define its prognosis.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Fox RI, Howell FV, Bone RC, Michelson P. Primary Sjögren syndrome: Clinical and immunopathologic features. *Semin Arthritis Rheum* 1984;14: 77-105.
2. Lima I, Carneiro ASB, Anorim CA. Hodgkin lymphoma as a complication of primary Sjögren's syndrome. *Mod Rheumatol* 2008;18:200-2.
3. Soldevilla HF, Molina RM, Navarra SV. Breast lymphoma in Sjögren's syndrome complicated by acute monocular blindness. *Int J Rheum Dis*. 2010 May;13(2):164-70.
4. Sultan SM, Ioannou Y, Isenberg DA. Is there an association of malignancy with systemic lupus erythematosus? An analysis of 276 patients under long-term review. *Rheumatology (Oxford)*. 2000;39(10):1147-52.
5. Bojinca V, Janta I. Rheumatic diseases and malignancies. *Maedica (Buchar)*. 2012;7(4):364-71.
6. Więckiewicz W, Bieniek A, Więckiewicz M, Sroczyk L. Interdisciplinary Treatment of BCC Located on the Nose - Review of Literature. *Adv Clin Exp Med* 2013 ;22(2):289.
7. Jetley S, Jairajpuri ZS, Rana S, Talikoti MA. Adenoid basal cell carcinoma and its mimics. *Indian J Dermatol* 2013;58(3):244.
8. Vu A, Laub D Jr. Metastatic Basal cell carcinoma: a case report and review of the literature. *Eplasty*. 2011;11:ic8.

How to cite this article:

Köşker TA, Erten Ş, Doğan HT. Primary Sjogren's Syndrome Associated with Basal Cell Carcinoma: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 111-3.



Acute Gastric Bleeding Due to Giant Hyperplastic Polyp

Dev Hiperplastik Polibe Bağlı Akut Gastrik Kanama

Dev Mide Polibi / Giant Gastric Polyp

Bulent Aksel¹, Lutfi Dogan¹, Salim Demirci², Ali Ekrem Unal², Hikmet Akgul²

¹Department of General Surgery, Ankara Oncology Training and Education Hospital,

²Department of Surgical Oncology, Ankara University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey

Özet

Hiperplastik gastrik polipler midenin en sık görülen benign lezyonlarından. Sıklıkla multiple, küçük ve asemptomatikler, özefagogastroduodenoskopi veya radyolojik incelemeler sırasında insidental olarak tanı konulur. Dev hiperplastik polipler oldukça nadirdirler ve çoğunlukla asemptomatikler. Altmışaltı yaşında bayan hasta akut gastrik kanama ile başvurdu. Gastrin seviyesi normal hastaya yapılan özefagogastroduodenoskopide mide antrumdan kaynaklanan yaklaşık 12 cm çapında geniş saplı difüz kanama bulguları gösteren polip izlendi ve biyopsiler alındı. Hastaya subtotal gastrektomi + Roux-Y gastrojejunostomi ameliyatı yapıldı. Patoloji sonucu yer yer ülserasyonların ve stromada iltihabi granülasyon dokusunun izlendiği hiperplastik polip olarak bildirildi. Akut üst gastrointestinal kanamaların ayırıcı tanısında dev hiperplastik polipler akılda tutulmalıdır.

Anahtar Kelimeler

Gastrointestinal Kanama; Hiperplastik Polip; Mide; Gastrektomi

Abstract

Hyperplastic gastric polyps account for the majority of benign gastric polyps. The vast majority of these lesions are small, asymptomatic and found incidentally on radiologic or endoscopic examination. Giant hyperplastic gastric polyps are uncommon and most of them are asymptomatic. We report a case of a 66-year-old woman who admitted because of acute gastric bleeding. The gastrin levels were within normal ranges. Esophagogastroduodenoscopy showed 12 cm pedunculated and multiple lobulated hyperplastic polyps arising from antrum with signs of diffuse oozing. The patient is treated by subtotal gastrectomy with Roux-Y gastrojejunostomy. Histological examination showed the presence of ulcers and regeneration findings with the contemporary occurrence of hyperplastic polyp. Giant hyperplastic gastric polyp should be kept in mind in the differential diagnosis of acute upper gastrointestinal bleeding.

Keywords

Gastrointestinal Bleeding; Hyperplastic Polyp; Stomach; Gastrectomy

DOI: 10.4328/JCAM.2032

Received: 22.08.2013

Accepted: 15.08.2013

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 114-6

Corresponding Author: Lutfi Dogan, Mehmet Akif Ersoy Mah. Demetevler, Ankara, Türkiye.

T.: +905057134549 F.: +90 3123360909 E-Mail: lutfidogan1@gmail.com

Introduction

Gastric polyps are frequently found incidentally when upper gastrointestinal endoscopy is performed for any indication. (Approximately 6% of upper gastrointestinal endoscopic procedures in United States [1]). These lesions rarely cause symptoms or clinical signs. However, these polyps carry significant importance because of their malignant potential. Hyperplastic gastric polyps account for the majority of benign gastric polyps. Hyperplastic polyps, fundic gland polyps, gastric adenomas and some of gastric carcinoid tumors may present as a gastric polyp. These lesions usually occur in the antrum, but may occur in the other regions of stomach as well. Polyps greater than 2 cm are at significant risk for malignancy and they require complete resection [2]. When cause symptoms, these polyps may present with occult gastrointestinal bleeding or obstruction, rarely [3].

Case Report

A 66 years old woman with congestive heart failure in her medical history came to the emergency room with acute gastric bleeding. She was suffering from nausea, hematemesis, vomiting, weakness, palpitation, abdominal pain, melena and rectal bleeding. Physical examination revealed marked tachycardia 120 b/min, blood pressure 80/60 mmHg pallor, pretibial edema and S3 gallop rhythm with auscultation. Laboratory data revealed severe iron deficiency anemia with hemoglobin level of 7.5 g/dl and mean corpuscular volume of 62.3 fL. The red cell distribution width was 29.8 and the reticulocyte count was 3%. On further investigation, the serum iron level was low at 13 mcg/dl, total iron binding capacity (TIBC) was elevated at 386 mcg/dl and the transferrin saturation was low at 2,7%. Serum ferritin level was 4,5 ng/ml, the vitamin B-12 level was 1394 pg/ml and all other biochemical work up for anemia was within normal ranges. As part of upper gastrointestinal bleeding work up endoscopy and endoscopic biopsies were performed urgently. The esophagogastroduodenoscopy showed a giant pedunculated hyperplastic polyp arising from antrum. Diffuse oozing and numerous diffuse polyps of varying size and shape filling the antrum were noticed (Figure-1). On the first day of admission 4 units of erythrocyte suspension and 4 units of fresh frozen plasma transfusion were performed. After transfusion

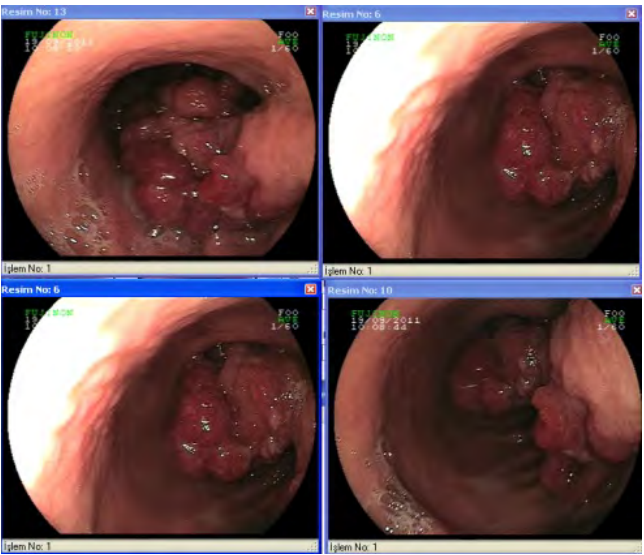


Figure 1. Endoscopic image of pedunculated polyp arising from antrum

and intravenous hydration patient's vital findings are stabilized. Hemoglobin level was 10,5 g/dl. On the second day of admission echocardiography was performed. Ejection fraction was determined as 45% and minimal pericardial effusion detected. Second look esophagogastroduodenoscopy showed that the bleeding has stopped. After cardiology consultation, treatment of heart failure is regulated. Histopathological examination was reported as hyperplastic polyp with the contemporary occurrence of foveolar hyperplasia. The patient underwent a subtotal gastrectomy with Roux-Y esophagojejunostomy reconstruction on the fourth day of admission. Open surgery preferred due to patient's cardiac status. Inspection of the specimen showed that the polyp has the largest diameter of 12cm. No postoperative complications occurred and the patient is discharged on the postoperative sixth day. The histopathological examination of the specimen confirmed the presence of hyperplastic polyp with the contemporary occurrence of foveolar hyperplasia, ulcers and regeneration findings mixed hyperplastic and adenomatous polyps, and adenomatous polyps with a tubular pattern. Some polyps had aspects of serrate adenoma. Atrophic gastritis with intestinal metaplasia was also present, with no morphological and histochemical evidence of *Helicobacter pylori* infection.

Discussion

Gastric polyps can be classified as hyperplastic, adenomatous, fundic or inflammatory polyps. Hyperplastic polyps account for 25-90% of gastric polyps [4,5]. Most gastric polyps have asymptomatic presentations and are incidental findings on upper endoscopy with an incidence of approximately 6% [1]. Their pathogenesis is unknown but the vast majority of hyperplastic polyps occur as multiple lesions often arising from inflamed gastric mucosa [6]. Infection of the gastric mucosa with *Helicobacter pylori* has been reported in up to 90% of the cases. The non bacterial causes are chemical or reactive gastritis [4]. However our patient did not have any documented history of *Helicobacter pylori*. Polyps can occur in any part of the stomach. Hyperplastic polyps were most common in the antrum (60%). Multiplicity of hyperplastic polyps and a proximal location are common in patients with autoimmune gastritis [7]. Pathologically, they are characterized by dilated, tortuous gastric foveoli set within an inflamed, edematous stroma [8]. Symptomatic presentations can range from an ulcerated polyp leading to anemia and occult bleed to complete gastric outlet obstruction [9]. In fact, in a series of 987 patients by Al-Haddad et al [10], the incidence of hyperplastic polyps in iron-deficiency patients was reported to be 1.4% and the largest polyp was 5 cm in diameter. Anemia is the most frequent clinical manifestation of diffuse gastric polyposis [11]. Carcinomatous transformation of isolated hyperplastic polyps is rarely reported, occurring in less than 2% of cases. The risk increases when they are associated with pernicious anaemia [12,13]. Hyperplastic polyps can vary in size from a few millimeters to several centimeters, with the largest polyp reported being 9 cm [6]. Average size of hyperplastic polyps is approximately 1 cm in maximal diameter. In our case the size of the polyp was 12 cm. Giant hyperplastic gastric polyps are fairly uncommon. Patients with hyperplastic polyps, greater than 3 cm in largest diameter,

are more likely to be symptomatic. These giant hyperplastic polyps represent about 2% of all hyperplastic polyps. These lesions may result from merging of focal clusters of small hyperplastic polyps, and become a conglomerate mass. They are seen as smooth, lobulated masses in the antrum [14]. Also, there are reported cases of pancreatitis and duodenal mass and pancreatitis due to giant gastric hyperplastic polyps in the literature [15]. On searching the PubMed database (www.ncbi.nlm.nih.gov/PubMed) for hyperplastic gastric polyps, we found three cases of hyperplastic gastric polyps, presenting with acute upper gastrointestinal bleeding [16-18]. The polyp became an obstacle inside the lumen of duodenum causing obstruction in the first mentioned patient and hematemesis was resulted in due to secondary hypergastrinemia. Polyps were not large in the other two cases and anticoagulant drug utilization was blamed for bleeding etiology. Endoscopic hemoclippping was the treatment procedure for bleeding in the case reported by Okana et al [17]. Gastric wedge resection was applied for the polyp localised to the smaller curvature of stomach in the case reported by Nayuda et al [18]. In our case the patient came to the emergency room with sings of acute upper gastrointestinal bleeding as hematemesis, melena and rectal bleeding. There is no anamnesis of anticoagulant drug utilization in our case. The probable reason for bleeding was the enlargement of the polyp into huge size and the patient had to had subtotal gastrectomy for this reason. In our case the size of the polyp is quite remarkable. But the main point to be taken into consideration is the need for radical surgery for patient. There is no alternative treatment other than radical gastrectomy for the gastric polyp which is in giant diameter and causes severe bleeding. In conclusion, giant hyperplastic gastric polyp should be kept in mind in the differential diagnosis of acute upper gastrointestinal bleeding. Endoscopic management of small sized gastric polyps prevents future feasible complications.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Carmack SW, Genta RM, Schuler CM, Saboorian MH. The current spectrum of gastric polyps: a 1-year national study of over 120,000 patients. *Am J Gastroenterol*. 2009; 104(6): 1524-32.
2. Hirota WK, Zuckerman MJ, Adler DG, et al. ASGE guideline: the role of endoscopy in the surveillance of premalignant conditions of the upper GI tract. *Gastrointest Endosc*. 2006; 63(4): 570-80.
3. Parikh M, Kelley B, Rendon G, Abraham B. Intermittent gastric outlet obstruction caused by a prolapsing antral gastric polyp. *World J Gastrointest Oncol*. 2010; 2(5): 242-6.
4. Debongnie JC. Gastric polyps. *Acta Gastroenterol Belg*. 1999; 62: 187-189.
5. Veereman Wauters G, Ferrell L, Ostroff JW, et al. Hyperplastic gastric polyps associated with persistent *Helicobacter pylori* infection and active gastritis. *Am J Gastroenterol*. 1990; 85: 1395-1397.
6. Archimandritis A, Spiliadis C, Tzivras M, et al. Gastric epithelial polyps: a retrospective endoscopic study of 12974 symptomatic patients. *Ital J Gastroenterol*. 1996; 28(7): 387-90.
7. Abraham SC, Singh VK, Yardley JH, Wu T. Hyperplastic polyps of the stomach: associations with histologic patterns of gastritis and gastric atrophy. *Am J Surg Pathol*. 2001; 25: 500-507.
8. Jain R, Chetty R. Gastric hyperplastic polyps: a review. *Dig Dis Sci*. 2009; 54(9): 1839-46.
9. Dean PG, Davis PM, Nascimento AG, Farley DR. Hyperplastic gastric polyp causing progressive gastric outlet obstruction. *Mayo Clin Proc*. 1998; 73(10): 964-7.
10. Al-Haddad M, Ward EM, Bouras EP, Raimondo M. Hyperplastic polyps of the gastric antrum in patients with gastrointestinal blood loss. *Dig Dis Sci*. 2007; 52(1): 105-9.
11. Rozas DA, Rackoff AI, Brady PG. Hyperplastic gastric polyposis: a rare entity.

- Clin Gastroenterol Hepatol*. 2010; 8: 85.
12. Diablo M, Itabashi M, Hirota T. Malignant transformation of gastric hyperplastic polyps. *Am J Gastroenterol*. 1987; 82: 1016-1025
13. Carmack SW, Genta RM, Graham DY, Lauwers GY. Management of gastric polyps: a pathology-based guide for gastroenterologists. *Nat Rev Gastroenterol Hepatol*. 2009; 6: 331-41.
14. Cherukuri R, Levine MS, Furth EE, et al. Giant hyperplastic polyps in the stomach: radiographic findings in seven patients. *AJR*. 2000; 175: 1445-1448.
15. De la Cruz RA, Albillos JC, Oliver JM, et al. Prolapsed hyperplastic gastric polyp causing pancreatitis: case report. *Abdom Imaging*. 2001; 26(6): 584-6.
16. Brooks GS, Frost ES, Wesselhoeft C. Prolapsed hyperplastic gastric polyp causing gastric outlet obstruction, hypergastrinemia, and hematemesis in an infant. *J Pediatr Surg*. 1992; 27(12): 1537-8.
17. Okano H, Saitou T, Sase T. Bleeding from a gastric hyperplastic polyp during anticoagulation therapy. *Intern Med*. 2011; 50(12): 1349.
18. Nayudu SK, Niazi M, Balar B, Kumbum K. A rare complication of hyperplastic gastric polyp. *Case Rep Gastrointest Med*. 2013; 2013: 631975.

How to cite this article:

Aksel B, Dogan L, Demirci S, Unal AE, Akgul H. Acute Gastric Bleeding Due to Giant Hyperplastic Polyp. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 114-6.



Pleural Effusion and Differential Diagnosis in a Patient with Rheumatoid Arthritis

Romatoid Artritli Hastada Plevral Efüzyon ve Ayırıcı Tanı

Romatoid Artritli Hastada Plevral Efüzyon / Pleural Effusion in a Patient with Rheumatoid Arthritis

Jülide Çeldir Emre¹, Ayşegül Baysak², Ümit Aksoy¹, Adnan Tolga Öz², Nigar Dirican³

¹Turgutlu Devlet Hastanesi, Göğüs Hastalıkları Kliniği, Manisa

²İzmir Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, İzmir

³İzmir Suat Seren Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim Araştırma Hastanesi, Göğüs Hastalıkları, İzmir, Türkiye

Türkiye Solunum Araştırmaları Derneği (TÜSAD) 2013 (Çeşme) Ulusal Kongresi'nde poster sunumu olarak kabul edilmiştir.

Özet

30 yaşında Romatoid artrit (RA) tanısı olduğu bilinen, son iki yıldır düzenli ilaç kullanımı ve doktor takibinde olmayan olgu ani başlayan yan ağrısı şikayeti ile başvurdu. PA akciğer grafisinde plevral efüzyon ile uyumlu görünüm izlendi. Torasentez uygulandı. Hemorajik nitelikte plevral efüzyon alındı. Klinik, radyolojik ve laboratuvar bulguları ile romatoid plörezi düşünüldü. Bu makalede olgumuz, RA'lı olgularda ortaya çıkan plevral efüzyonun ayırıcı tanısı sırasındaki zorluklar ve ayrıntıların vurgulamak amacıyla literatür eşliğinde sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Plevral Efüzyon; Romatoid Artrit; Ayırıcı Tanı

Abstract

A 30-year-old woman who had been diagnosed rheumatoid arthritis many years ago and not treated since 2 years was referred to local the Department of Chest Diseases of State Hospital with a sudden onset of right lateral chest pain. The chest X-ray on admission showed pleural effusion on the right hemithorax. Thoracentesis was applied. Hemorrhagic pleural effusion was obtained. It was thought rheumatoid pleurisy with its clinical, radiological and laboratory findings. In this case report, we have presented the difficulties during differential diagnosis of pleural effusion in rheumatoid arthritis patients and details accompanied by a literature review.

Keywords

Pleural Effusion; Rheumatoid Arthritis; Differential Diagnosis

DOI: 10.4328/JCAM.2045

Received: 04.09.2013 Accepted: 18.09.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 117-9

Corresponding Author: Ayşegül Baysak, İzmir Üniversitesi Tıp Fakültesi Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, Yeni Girne Blv. 1825 Sokak No:12 Karşıyaka, İzmir, Türkiye.

E-Mail: drbaysak@gmail.com

Giriş

Romatoid artrit (RA) % 0.4-1 oranında görülen, kronik seyirli sistemik inflamatuvar bir hastalıktır. Genellikle eklemlerde simetrik tutulum yapar, ancak klinik gözlemler ve çalışmalarda hastalığın sistemik özelliğini yansıtan yaygın eklem dışı tutulumu da gösterilmiştir [1]. Romatoid faktör (RF) düzeyi yüksek olanlarda eklem dışı organ ve/veya sistem tutulumu daha sık görüldüğü bildirilmektedir. RF ve antinükleer antikor (ANA) pozitifliği, sigara kullanımı ve erken fonksiyon kaybı, eklem dışı tutulum için önemli belirteçler olarak değerlendirilmiştir [2].

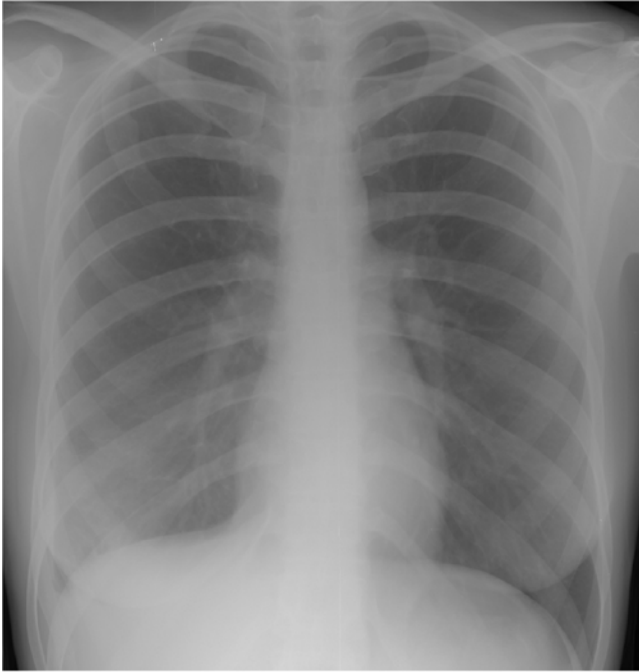
RA'de akciğer tutulumu havayolu hastalıkları, plöritis (sıvılı veya sıvısız), bronşektazi, romatoid nodül, bronşiolitis obliterans organize pnömoni (BOOP), interstisyel akciğer hastalığı, pulmoner vasküler lezyonlar ve pulmoner hipertansiyon şeklinde olabilir [3, 4]. Klinik semptom veren plevral efüzyon RA'li %3-5 olguda görülür [5].

RA'te plevral efüzyon genellikle tek taraflı, az veya orta miktarda plevral sıvı şeklinde görülür. Plevral sıvıda pH ve glukoz düzeyi düşük, LDH yüksektir; eksuda niteliğindedir [3].

RA'e bağlı tek taraflı plevral efüzyonu olan, steroid tedavisi ile plevral efüzyonu tedavi olan olgu nadir görülmesi ve RA'te plevral efüzyonun ayırıcı tanılarındaki zorluğu vurgulamak amacıyla literatür eşliğinde sunmayı uygun bulduk.

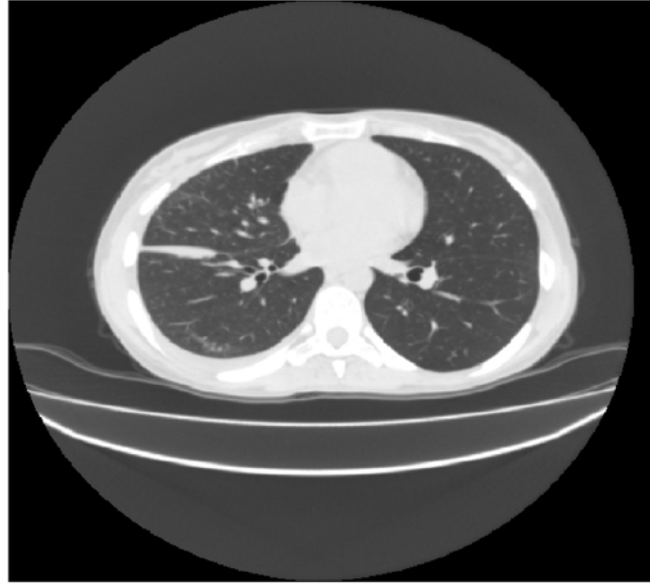
Olgu Sunumu

30 yaşında, sigara öyküsü olmayan kadın hasta birkaç gündür olan sağ yan ağrısı şikayeti ile göğüs hastalıkları polikliniğimize başvurdu. 15 yıldır RA tanısı mevcut olan olgunun son iki yıldır romatoloji poliklinik kontrolüne gitmediği ve düzensiz ilaç kullandığı öğrenildi. Klinik başvurusunda belirgin bir eklem ağrısı tariflememekteydi. Çekilen akciğer grafisinde sağ sinüs küntlüğü, sol bazalde dansite artışı gözlemlendi (Resim-1). Toraks bil-

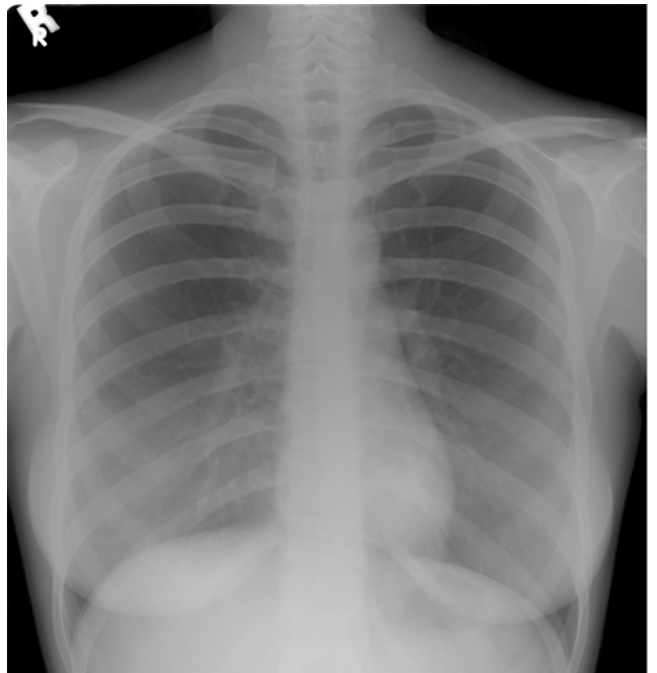


Resim 1. Olgunun kliniğimize başvurusunda çekilen PA akciğer grafisi

gisayarlı tomografide sağda fissür içine uzanan plevral efüzyon saptandı, pulmoner emboli veya akciğer kanserini düşündürecek herhangi bir bulgu izlenmedi (Resim-2). Plevral efüzyon



Resim 2. Kliniğimize başvurusunda çekilen toraks BT görüntüsü



Resim 3. Tedavinin 1. ayında çekilen PA akciğer grafisi

etiyojisini değerlendirmek amacıyla torasentez yapıldı. Hemo-rajik görünümdeki torasentez sıvısının biyokimyasal incelemesinde glukoz 90 mg/dl, protein 4.8 g/dl (serum:3.8 g/dl), LDH 559 U/L (serum:348 U/L), adenozin deaminaz (ADA) 28 U/L saptandı. Plevral sıvı sonucu eksuda olarak yorumlandı. Plevral sıvı nonspesifik kültüründe ve tüberküloz kültüründe üreme saptanmadı. Sitolojik incelemesinde nötrofil hakimiyeti mevcuttu. Romatoid artrit tanısı olan ve serum RF düzeyi 198.3 mg/dl ölçülen hastada klinik radyolojik ve laboratuvar bulguları ile ayırıcı tanıları yapılarak plevral efüzyon etiyojisinin RA'e bağlı olduğu düşünüldü. Romatoloji hekimi tarafından konsülte edilerek prednol 16 mg/gün şeklinde tedavisi yeniden düzenlendi ve takibe alındı. Olgunun 1. ay kontrol akciğer grafisinde plevral efüzyon saptanmadı (Resim-3). Ayırıcı tanısında pulmoner emboli, tüberküloz ve malignite dışlanan hastamızda klinik, radyolojik ve laboratuvar verileri ile RA'e bağlı plevral efüzyon düşünülmüş ve başlanmış olan kortikosteroid tedavi ile 1. ayda radyolojik regresyon sağlanmıştır.

Tartışma

Akciğerler konnektif doku ve yoğun vasküler yapı içermeleri nedeniyle ile kollojen doku hastalıklarında sık tutulum göstermektedir. Romatoid artritte akciğer tutulumu plevra ve parankim tutulumu, vasküler lezyonlar şeklinde olabilir. RA 4.-5. dekatlarda pik yapan, kadınlarda daha sık görülen kronik inflamatuvar bir hastalıktır [1-6]. Fakat romatoid plörezi olan olgular genellikle ileri yaş, erkek olgulardır. Bizim olgumuz ise genç kadın hastaydı. Romatoid plörezi gelişimi RA'de hastalık atağı olarak kabul edilmektedir [7]. Nitekim olgumuz gebelik ve emzirme nedeniyle son iki yıldır düzensiz ilaç kullandığını belirtmiş, RA tedavisi yeniden düzenlendikten sonra şikayetleri gerilemiştir.

Plevral efüzyon, genellikle hastalığın eklem tutulumundan sonra, ancak bazen eklem tutulumuyla aynı zamanda ya da daha önce ortaya çıkabilir [8]. Olgumuz 15 yaşında eklem tutulumları ile tanı almış, 15 yıl sonra da plevral sıvısı ortaya çıkmıştı.

Plevral sıvı pseudoşilöz, seröz ve hemorajik olabilir [9]. Pseudoşilöz efüzyonlar tüberküloz plörezilerinde de görülebilmektedir. Olgumuzun yapılan torasentez sonucu alınan plevral efüzyonu ise hemorajik nitelikteydi.

RA'da plevral efüzyon eksüda özelliğinde olup %80 olguda glukoz 30 mg/dL altında bulunmaktadır [5]. Plevra sıvısında glukoz oranının çok düşük görülmesi ampiyem ve RA'de izlenmektedir. İnflamasyonlu ve kalın plevranın, glukozun plevral boşluğa geçişini engellediği ve plevral yüzeyde glukoz tüketiminin arttığı düşünülmektedir [10]. Ancak olgumuzda plevral sıvı glukoz seviyesi normal sınırlarda bulunulmuştur; akut romatoid plörezide glukozun normal olabileceği belirtilmiştir [9]. Bulcun ve ark. [11] RA'e bağlı plevral ve perikardiyal efüzyonlu olgusunda, Gündoğan ve ark. [12] akciğer semptomları ile başlayan RA olgusunda plevral efüzyonda glukoz düzeyleri normal düzeylerde bulunmuştur. Plevral sıvıda RF ölçülebileceği belirtilmiş, fakat genellikle serum değerini yansıttığından ve diğer etyolojilerde de pozitif bulunabildiğinden tanıya çok fazla katkısı olmadığı belirtilmektedir [9]. Bizim olgumuzda plevra sıvısında RF değeri istenmemiştir. Özellikle sigara içenlerde plevral efüzyon ayırıcı tanısında mutlak maligniteler de düşünülmelidir. Sigara kullanmayan olgumuzun çekilen toraks BT'sinde malignite bulgusu saptanmadı. Plevral sıvı yaymasında nötrofil hakimiyeti vardı. Sitolojik olarak benign olarak değerlendirildi.

Yine ülkemizde tüberküloz insidansının yüksek olması da ayırıcı tanıda tüberküloz plöreziyi akla getirmiştir. RA'e bağlı plevral efüzyonda da ADA yüksekliği görülebilmese rağmen olgumuzun plevral sıvısında ADA düzeyinin düşük saptanması, plevra sıvısı asidorezistan basil direkt bakı sonucunun negatif olması nedeniyle tüberküloz tanısından uzaklaşmıştır. İzlemde tüberküloz kültüründe üreme saptanmamıştır.

Ani gelişen yan ağrısı olması, sıvısının az miktarda ve hemorajik olması nedeniyle ayırıcı tanıda pulmoner tromboemboli de düşünülerek toraks anjioBT çekildi. Pulmoner arterlerde emboli ile uyumlu dolum defekti izlenmedi.

Ayırıcı tanıları yapıldıktan sonra klinik, radyolojik ve laboratuvar bulguları ile romatoid plörezi tanısı konan olgumuzun, kortikosteroid tedavisi düzenlendikten 1 ay sonraki kontrolünde plevral sıvı tamamen kaybolmuştur.

Sonuç olarak, RA'li olgularda ortaya çıkan plevral efüzyon primer hastalığa bağlı ortaya çıkabileceği gibi başta immünsupresyon nedeniyle tüberküloz, malignite, bakteriyel infeksiyonla-

ra da bağlı olabileceğinden dikkatli olunmalıdır. Detaylı incele-nip ayırıcı tanısının yapılması uygun tedavinin seçilmesi açısından önemlidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Hazes JM. Management of extra-articular disease and complications. In: Hochberg MC, Silman AJ, Smolen JS, Weinblatt ME, Weisman MH, editors. Rheumatology. 4th ed. Edinburgh: Mosby; 2008.
2. Prete M, Racanelli V, Digiglio L, Vacca A, Dammacco F, Perosa F. Extra-articular manifestations of rheumatoid arthritis: an update. Autoimmun Rev 2011; 11: 123-31.
3. Bongartz T, Nannini C, Medina-Velasquez YF, et al. Incidence and mortality of interstitial lung disease in rheumatoid arthritis: a population-based study. Arthritis Rheum 2010; 62: 1583-91.
4. Kim EJ, Collard HR, King TE Jr. Rheumatoid arthritis-associated interstitial lung disease: the relevance of histopathologic and radiographic pattern. Chest. 2009; 136: 1397-405.
5. Tanoue LT. Pulmonary manifestations of rheumatoid arthritis. Clin Chest Med 1998; 19: 667-85.
6. Cimen F, Ciftci Ulukavak T, Dulkan Dursun G. Romatoid artrite bağlı plöropulmoner tutulumu bir örnek: Romatoid plevral efüzyon (Bir olgu nedeniyle). Solunum Hastalıkları 2001; 12: 233-7.
7. Bozbas SS, Akcay S. Romatoid artrite bağlı nadir gelişen bir komplikasyon: Psödoşilotoraks. TTD Plevra Bülteni 2010; 4(3): 28-31.
8. Aslankara N, Aksel N, Cakan A, Ozsoz A, Yener AG. Plevral tutulum gösteren bir romatoid artritis olgusu. İzmir Göğüs Hastanesi Dergisi 2007; 3: 65-9.
9. Hooper C, Lee Gary YC, Maskell Nick. Erişkinlerdeki tek taraflı plevral efüzyonların araştırılması: Britanya Toraks Derneği Plevral Hastalıklar Kılavuzu 2010.
10. Joseph J, Sahn SA. Connective tissue diseases and pleura. Chest 1993; 104: 262-70.
11. Bulcun E, Ekici A, Ekici M, Senturk E, Tireli G, Altinkaya V, Karakoc T. Romatoid artrite bağlı plevral ve perikardiyal efüzyonlu olgu. Solunum Hastalıkları 2009; 20(2): 60-63.
12. Guldogan ZA, Gundogdu I, Cevikel A, Arat H, Cakci A. Akciğer semptomları ile başlayan romatoid artritis. Fiziksel Tıp 2004; 7(2): 85-88.

How to cite this article:

Emre JÇ, Baysak A, Aksoy Ü, Öz AT, Dirican N. Pleural Effusion and Differential Diagnosis in a Patient with Rheumatoid Arthritis. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 117-9.



Laparoscopy-Assisted Cystectomy: Management of a Large Ovarian Cyst with Torsion

Laparoskopik Asiste Kistektomi: Torsiyone Olmuş Büyük bir Over Kistinin Yönetimi

Laparoskopik Asiste Kistektomi / Laparoscopy-Assisted Cystectomy

Emin Üstünyurt, Müzeyyen Duran,
Bursa Şevket Yılmaz Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kadın Hastalıkları ve Doğum Kliniği, Bursa, Türkiye

Özet

Over kistleri kadınlarda pelvik kitlelerin en sık nedenidir. Over kistlerinin altın standart tedavisi laparoskopik cerrahi olarak düşünülmesine karşın, pek çok büyük over kisti, teknik güçlükler nedeni ile laparotomi ile tedavi edilmeye devam etmektedir. Bu tür olguların yönetiminde laparoskopik asiste kistektomi alternatif bir operasyondur. Bu yazıda 21 yaşında bakire bir hastada torsiyone olmuş büyük bir over kisti olgusu sunulmaktadır. Bu olguda intraoperatif bir komplikasyon olmadan laparoskopik asiste kistektomi gerçekleştirilmiştir. Postoperatif dönem sorunsuz idi. Patoloji benign seröz kistadenom olarak rapor edildi. 6 aylık takipte hasta asemptomatik olmaya devam etti ve sonografide hastalığa ilişkin bir rekürrens gözlenmedi. Laparoskopik asiste kistektomi büyük adneksiyal kistler için etkin ve güvenli bir prosedürdür.

Anahtar Kelimeler

Laparoskopi; Laparoskopik Asiste Cerrahi; Büyük Over Kisti

Abstract

Ovarian cysts are the most common cause of pelvic masses in women. Although laparoscopic surgery is considered the gold standard treatment for ovarian cysts, most of the large ovarian cysts continue to be treated by laparotomy due to technical difficulties. Laparoscopic-assisted cystectomy is an alternative operation type for managing such cases. A case of large ovarian cyst with adnexal torsion in a 21-year-old virgin patient is presented in this report. In this case laparoscopic-assisted cystectomy was performed without intraoperative complication. Postoperative course was uneventful. Pathology revealed a benign serous cystadenoma. At 6 months follow up, she continued to be asymptomatic, and sonography showed no recurrence of her disease. Laparoscopic-assisted cystectomy is a safe and effective procedure for large adnexal cysts.

Keywords

Laparoscopy; Laparoscopy-Assisted Surgery; Large Ovarian Cyst

DOI: 10.4328/JCAM.2040

Received: 30.08.2013 Accepted: 28.09.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 120-2

Corresponding Author: Emin Üstünyurt, Saygıncık Sitesi B-Blok No=41, Nilüfer, 16120, Bursa, Türkiye.

T.: +905057571874 E-Mail: dreminustunyurt@yahoo.com.tr

Introduction

Ovarian cysts are the most common cause of pelvic masses in women, and in the majority of the cases, women are in their fertile age [1]. Today, the surgical treatment has become more conservative and less invasive; hence, a laparoscopic approach in the presence of benign cysts has become a gold standard [2]. Most of the large ovarian cysts, however, continue to be treated by laparotomy because of large tumor size, suspicion of malignancy or inadequate surgeon experience. Laparoscopic-assisted cystectomy is an alternative operation type for managing such cases [3]. In this report we present a 14 cm serous cystadenoma managed by laparoscopic-assisted cystectomy

Case Report

A 21- year-old virgin patient presented with severe right- sided pelvic pain. Abdominal sonography revealed a 14 × 8 centimeters large cystic lesion occupying nearly the entire right side of the abdomen. There was no sign of calcification or papillary projection. A moderate amount of free intraperitoneal fluid was present in the cul-de-sac. Sonographic findings were suggestive of adnexal torsion. The levels of serum tumor markers were normal. Both laboratory studies and imaging findings supported the benign nature of the cystic mass. Assuming the cyst to be benign in nature, laparoscopic excision was planned. Two ports with the diameter of 10 mm were used. After creating pneumoperitoneum by Verres needle we introduced a 10 mm trocar in to the abdominal cavity from the lower border of the umbilical fold. A second 10 mm trocar was inserted at the mid-line 2 cm above the pubic margin. The cyst wall was punctured and drained by suction device through this supra-pubic entry. When the cyst became flaccid, the puncture site on the cyst was grasped with forceps. After visualization of pelvic structures completely, detorsion of the twisted adnexa was performed. Later the cyst was pulled out under direct telescopic vision (Figure 1). At that



Figure 1. Extirpation of cyst capsule

time supra-pubic incision was widened to 3 cm. Extracorporeal cystectomy was performed successfully (Figure 2). After achieving adequate hemostasis, the edges of ovary tissue were approximated by 3-0 vicryl and placed into its original site. The estimated blood loss was 50 ml. The operative time was 15 minutes. Postoperative course was uneventful. The patient was discharged on the postoperative day 2 without any complications. Pathology revealed a benign serous cystadenoma. At 6 months follow up, she continued to be asymptomatic, and sonography showed no recurrence of her disease.



Figure 2. Cyst capsule

Discussion

In the present case, the patient is a virgin and both aesthetic and fertility results of the operation are important issues. Although laparoscopy is commonly chosen in such cases, sometimes laparotomy is preferred because of large tumor size, suspicion of malignancy or inadequate surgeon experience. The extremely large ovarian cyst presents a major challenge for the endoscopic surgeon. Increased probability of malignancy, technical problems related to the removal of such cysts and perioperative problems related to cardiorespiratory functional changes may complicate surgery for such cysts [4]. Some surgeons limited laparoscopic surgery to ovarian cyst of size less than 10 cm [5-6]. For apparently benign, extremely large ovarian cysts; only few surgeons advocate laparoscopic management [7,8]. Salem [8] reported 15 cases of large benign ovarian cysts reaching above the level of the umbilicus, which were managed laparoscopically. Sagiv et al. [9] reported the outcomes of 21 patients with extremely large ovarian cysts who were managed laparoscopically. They concluded that with proper patient selection the size of an ovarian cyst is not necessarily a contradic-

tion for laparoscopic surgery.

During the laparoscopic excision of large ovarian cysts, sometimes the cyst wall cannot be removed completely without damaging the normal ovarian tissue leading to inadequate cure rates. Additionally satisfactory hemostasis could not be managed easily thus more than required tissue is coagulated resulting more functional tissue lost from the ovary.

Laparoscopic assisted surgery is an alternative procedure for large adnexal cysts. Panici et al. [10] compared laparoscopy with laparoscopically guided minilaparotomy for large adnexal masses. They concluded that laparoscopically guided minilaparotomy should be considered in women desiring a minimally invasive strategy for large cysts. Gocmen et al. [11] reported the surgical outcome of 46 women underwent laparoscopy-assisted surgery for large adnexal cysts. The authors suggested that laparoscopy-assisted surgery is feasible and safe for women with large benign adnexal cysts and results in a short surgery time.

In contrast to laparoscopy, complete extirpation of the cyst wall and satisfactory hemostasis could be managed easily by laparoscopic assisted cystectomy. In this procedure the operative time is shorter which is crucial for patients with cardiorespiratory problems and the cosmetic results of the operation is comparable with laparoscopy.

In conclusion laparoscopic-assisted cystectomy is a safe and effective procedure for large adnexal cysts and possibly be superior to the laparoscopy in terms of preservation of normal ovarian tissue.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Pavlik EJ, Ueland FR, Miller RW, Ubellacker JM, Desimone CP, Elder J, Hoff J, Baldwin L, Kryscio RJ, van Nagell JR Jr. Frequency and disposition of ovarian abnormalities followed with serial transvaginal ultrasonography. *Obstet Gynecol* 2013; 122:210-7.
2. Chapron C, Dubuisson JB, Fritel X, Rambaud D. Diagnosis and management of organic ovarian cysts: indications and procedures for laparoscopy. *Hum Reprod Update* 1996; 2:435-46.
3. Eltabbakh GH, Charboneau AM, Eltabbakh NG. Laparoscopic surgery for large benign ovarian cysts. *Gynecol Oncol* 2008; 108:72-6.
4. Nagele F, Magos A. Combined ultrasonographically guided drainage and laparoscopic excision of a large ovarian cyst. *Am J Obstet Gynecol* 1996; 175:1377-8.
5. Pittaway DE, Takacs P, Bauguess P. Laparoscopic adnexectomy: A comparison with laparotomy. *Am J Obstet Gynecol* 1994; 171:385-91.
6. Nezhat F, Nezhat C, Welander CE, Benigno B. Four ovarian cancers diagnosed during laparoscopic management of 1011 women with adnexal masses. *Am J Obstet Gynecol* 1992; 167:790-6.
7. Lin P, Falcone T, Tulandi T. Excision of ovarian dermoid cyst by laparoscopy and by laparotomy. *Am J Obstet Gynecol* 1995; 173:769-71.
8. Salem HA. Laparoscopic excision of large ovarian cysts. *J Obstet Gynaecol Res* 2002; 28:290-4.
9. Sagiv R, Golan A, Glezerman M. Laparoscopic management of extremely large ovarian cysts. *Obstet Gynecol* 2005; 105: 1319-22.
10. Panici PB, Palaia I, Bellati F, Pernice M, Angioli R, Muzii L. Laparoscopy compared with laparoscopically guided minilaparotomy for large adnexal masses: a randomized controlled trial. *Obstet Gynecol* 2007; 110: 241-8.
11. Göçmen A, Atak T, Uçar M, Sanlıkal F. Laparoscopy-assisted cystectomy for large adnexal cysts. *Arch Gynecol Obstet* 2009; 279: 17-22.

How to cite this article:

Üstünyurt E, Duran M. Laparoscopy-Assisted Cystectomy: Management of a Large Ovarian Cyst with Torsion. *J Clin Anal Med* 2015; DOI: 10.4328/JCAM.2040.



The Usage of 2 and 3-Dimensionel Ultrasound in Prenatal Diagnosis of Sacrococcygeal Teratoma: Report of a Case

Sakrokoksigeal Teratom Olgusunun Prenatal Tanısında 2 ve 3 Boyutlu Ultrasonografinin Kullanımı: Olgu Sunumu

Sakrokoksigeal Teratom Olgusunun Prenatal Tanısı / Prenatal Diagnosis of Sacrococcygeal Teratoma

Fatma Uysal¹, Gürhan Adam¹, Mustafa Reşorlu¹, Serçin Baş¹, Ahmet Uysal²

¹Radyoloji ABD, ²Kadın Hastalıkları ve Doğum ABD, Çanakkale Onsekiz Mart Üniversitesi, Çanakkale, Türkiye

Bu çalışma 34. TRD Kongresinde Poster olarak Kabul edilmiştir.

Özet

Sakrokoksigeal teratom 1:40.000 canlı doğum prevalansı ile tüm fetal tümörlerin yarısını oluşturmaktadır. Sıklıkla benign davranışlı olmasına rağmen, kalp yetmezliği ve hidropsa neden olması mortalite ve morbidite oranını yükseltmektedir. Kötü prognoza neden olan faktörler kitlenin solid komponentinin fazla olması ve 30 haftadan önce hidrops gelişmesidir. Prenatal dönemde B mod, renkli Doppler ultrasonografi ve üç boyutlu ultrasonografi (3B US) ile lezyonun karakterizasyonu yapılabilmektedir. 27 yaşında G2P1 gebeye yapılan obstetrik ultrasonografik değerlendirmede, biometrik ölçümlere göre 18. haftalık kız fetusta, sakrokoksigeal bölgede, 22x23 mm boyutlarında, düzgün sınırlı, heterojen ekojen içyapıda kitlesel lezyon saptandı. Ailenin gebeliğin devamını istemi ile gebelik terme kadar yakın takip edildi. Tümörün ani hızlı büyümesi nedeniyle, fetal hidrops veya placentomegali gibi komplikasyonlar gelişmemişken gebeliğin 36. haftasında sezaryen ile komplikasyonsuz olarak doğum gerçekleştirildi. Operasyon sonucu histopatolojik değerlendirmede sakrokoksigeal bölgedeki kitlesel lezyon immatür teratom olarak raporlandı.

Anahtar Kelimeler

Sakrokoksigeal Teratom; Üç Boyutlu Ultrasonografi (3B US); Prenatal Tanı

Abstract

Sacrococcygeal teratoma (SCT) with an estimated prevalence of 1:40.000 in living deliveries, accounts for the half of all fetal tumors. Although it occasionally poses a benign aspect, the rate of high mortality and morbidity due to this tumor occurs as a result of cardiac failure and hydrops. Poor prognostic factors of these tumors are the apparent (occurrence) of hydrops before 30 weeks in utero and occupying more solid component. In prenatal term characterization of this tumor can be made by B scan Doppler ultrasonography and three-dimensional (3D) ultrasonography. By the help of obstetric ultrasonographic evaluation of a 27 years old G2P1 pregnant, we determined a regular bordered and heterogenic endo-structured mass placed on the sacrococcygeal region of an 18 week old fetal girl according to biometrical measurements. Dimensions of this mass were 22x23 mm. Closed follow up was made till to term because of the demand of her parents for continuing the pregnancy. Since there were a sudden enlargement of tumor, just before occurrence of complications like fetal hydrops or placentomegaly, delivery was achieved successfully without complication in 36th week. As a result of operation, histopathological examination of this mass revealed immature teratoma.

Keywords

Sacrococcygeal Teratoma; Three-Dimensionel Ultrasound; Prenatal Diagnosis

Giriş

Sakrokoksigeal teratom (SKT) en sık görülen retroperitoneal benign tümördür. Sakrum veya koksiksin ön yüzeyinde bulunan Hensen's nodule denen pluripotent hücrelerden köken aldığı inanılmaktadır. 1: 40.000 canlı doğum prevalansı ile tüm fetal tümörlerin yarısını oluşturmaktadır [1].

SKT'un klinik önemi prenatal ve perinatal mortalite ve morbiditeyi arttıran ek patolojilerle birlikte izlenmesinden kaynaklanmaktadır [2].

SKT ultrasonografik gelişmeler sayesinde sakral bölgeden başlayan perine veya kalçaya doğru çıkıntılı kistik, solid veya mikst kitle şeklinde erken dönemde tanı almaktadır. Ancak, kistik SKT'lar yanlışlıkla anterior sakral meningomiyelosel tanısı alabilir [3].

Sonografik olarak malign / benign ayrımının yapılması mümkün olmamasına rağmen gebelik sırasında izlenebilecek maternal ve fetal komplikasyonlar ile gebeliği ve doğum şeklini belirlelenmesinde sonografinin yeri büyüktür. Bu sunumda prenatal iki boyutlu (2B) ve üç boyutlu (3B) ultrasonografi (US) görüntüleme ile SKT tanısı alan olgunun görüntülerini literatür eşliğinde tartışmayı amaçladık.

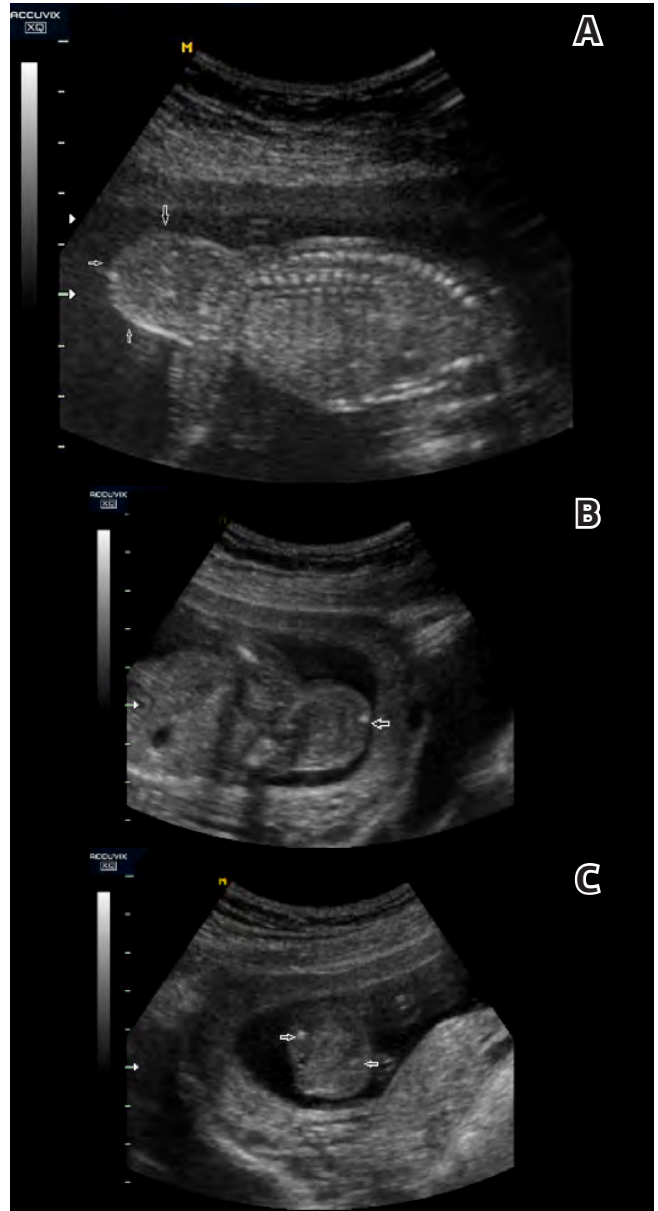
Olgu Sunumu

27 yaşında G2P1 gebe kliniğimize ilk obstetrik muayenesi için başvurdu. Gebenin obstetrik öyküsünde anomalisi olmayan bir sezaryen doğumu vardı. Mevcut gebeliğinde herhangi bir ilaç kullanımı, geçirilmiş bir hastalık öyküsü yoktu. Gebenin eşiyle akrabalığı veya ailesinde anomalili bir doğum yoktu. Yapılan obstetrik ultrasonografik değerlendirmede, biometrik ölçümlere göre 17. haftalık kız fetusta, 2B US incelemede sakrokoksigeal bölgede, 22x23 mm boyutlarında, heterojen içyapıda, ekojenik alanlar ve daha az oranda kistik komponentten oluşan kitlesel lezyon saptandı (resim 1). Yapılan 3B US incelemesinde de sakrokoksigeal bölgedeki düzgün yüzeyli kitle lezyonu görüntülendi (Resim 2). Fetusun ayrıntılı incelemesinde kranial veya spinal başkaca bir problem izlenmedi. Ailenin gebeliğin devamı istemi ile gebelik terme kadar yakın takip edildi. Gebenin kontraksiyonlarının başlaması nedeniyle, fetal hidrops veya plasentomegali gibi komplikasyonlar gelişmemişken gebeliğin 36. haftasında sezaryen ile komplikasyonsuz olarak doğum gerçekleştirildi. Yenidoğan doğumdan 2 gün sonra cerrahisi yapılmak üzere çocuk cerrahisi kliniğine sevk edildi. Operasyon sonucu histopatolojik değerlendirmede sakrokoksigeal bölgedeki kitlesel lezyon immatür teratom olarak raporlandı.

Tartışma

En sık konjenital tümör olan teratomlar aynı zamanda yenidoğan ve çocuklarda da en sık görülen germ hücreli tümördür. 1:35000 ile 1:40000 doğum sıklığında görülmekte olup sakrokoksigeal bölge teratomların en sık yerleşim gösterdiği yerdir. Kızlarda 4 kat daha sık görülmektedir [4]. Bizim olgumuz da bu veriyi destekleyecek şekilde kız fetüstü.

Teratomların makroskobik görünümü tipiktir ve olguların %88'inde üniloküle sebace materyal içerirler. Saç, deri glandları, kas, kalsifikasyon ve diğer dokular tümör içerisinde izlenebilir. Sıklıkla izlenen ve kitle içine doğru projekte olan solid komponent Rokitansky nodülü olarak adlandırılır [5]. Olgumuzda kitle içerisinde yağ komponentini düşündüren ekojenik alanlar ve



Resim 1. Sakrokoksigeal teratoma ait iki boyutlu ultrason görüntüleri (A)sagittal ve (B)koronal görüntülerde fetal lumbosakral bölgede solid komponentlerden oluşan büyük boyutlu kitle, (C)aksiyal görüntüde içerisinde milimetrik kalsifik alanlar (ok) bulunan solid kitlesel lezyon



Resim 2. Üç boyutlu ultrason görüntüsünde sakrokoksigeal bölgede lobule konturlu kitle lezyonu (ok)

kalsifikasyonu düşündüren kemik ile benzer hiperekojen, posterior akustik gölgelenmesi izlenen alanlar mevcuttu.

SKT olan olgularda prenatal mortalite ve morbidite sağlıklı olgulara kıyasla daha yüksektir. Büyük solid tümörlerde gelişen belirgin arteriovenöz şantlar fetal kardiyak yetmezlik ve hidrops

gelişimine neden olabilir. Erken doğum, anemi, distosi ve tümör rüptürü perinatal mortalite ve morbiditeyi yükselten diğer faktörlerdir. SKT olan hastalarda %15 oranında imperfore anus, sakral kemik defekti, uterus veya vajina duplikasyonu, spina bifida veya meningomyelosel gibi ek anomaliler gözlenebilir [2]. Bizim olgumuzda eşlik eden başkaca anomali saptanmadı. Otuz altıncı haftaya dek takiplerde komplikasyon gelişmedi.

Boyutları 5 cm'nin altında olan ve ilave anomali içermeyen sakrokoksigeal teratomlarda vajinal doğum mümkün olmasına rağmen 5 cm'den büyük lezyonlarda distosi veya hemoraji riski nedeni ile sezaryen tercih edilmektedir [6]. Olgumuz 36. gebelik haftasında kontraksiyonların başlaması nedeniyle mükerrer sezaryen olan olgu sezaryen ile doğurtuldu.

Doğumda sakrokoksigeal teratomların %80'i farklılaşmış matür ve tipik olarak pelviste bulunmayan hücreler içeren benign karakterde, %20'si ise sıklıkla nöral orijinli immatür dokular içeren malign karakterdedir [7]. Olgumuzda Postpartum operasyon sonrası histopatolojik tanı immatür teratom olarak değerlendirildi.

Her ne kadar antenatal ultrason ile malign tümörlerin benign tümörlerden ayrımı yapılamasa da antenatal tanı ve takip aşamasında, doğum zamanının ve şeklinin belirlenmesinde prognoz tahmininde vazgeçilmez bir öneme sahiptir.

Gebeliğin erken haftalarında SKT tespitinde en önemli yöntem 2B US olmasına rağmen sıklıkla 3B US ile tamamlayıcı bir şekilde kullanılmaktadır. Ultrasonografik inceleme sırasında özellikle sakral bölgede kistik, solid veya her iki komponenti de birden bulunduran mikst yapıda ve içeriğine göre değişik eko değerlerinde olabilen, bazen intraabdominal ve pelvik uzanım gösterebilen kitle izlenir. Ancak 3B US tekniğinin gelişimi ile birlikte SKT'un özellikle lokalizasyon, boyut, şeklinin belirlenmesi ve vertebra ile ilişkisinin saptanmasında önemli katkı sağladığı çeşitli çalışmalarda belirtilmiştir [8,9].

3B ultrason ile birlikte kullanılacak Power Doppler tümör dokusuna ait düşük akım hızına sahip küçük vasküler yapıları gösterebilecek hassasiyete sahiptir. İlave olarak vasküler yapılar ve fetal sirkülasyon arasındaki ilişkinin tanımlanmasını ve SKT'un kitle içerisindeki vasküler yapıların gösterilerek meningo-myeloselden ayrımını da mümkün kılar [10,11]. Olgumuzda daha çok ekojenik solid komponentlerden oluşan kitle lezyonu Doppler US da az sayıda vasküler kodlanma göstermekteydi.

Özetle; prenatal ultrasonografi; sakrokoksigeal teratom olgularında tümör saptanması, büyüme hızının ve eşlik edebilecek diğer anomalilerin değerlendirilmesinde, komplikasyonların erken tespit edilmesinde, doğum için uygun zaman ve yöntemin belirlenmesinde önemlidir.

3B US ile kitlenin yüzeyinin görüntülenmesi ile kitlenin kaynağı, morfolojisi ve ailenin patolojik durumu daha iyi anlayabilme olasılığının sağlanabilmesi açısından önemli olduğu görüşündeyiz. Bu nedenlerle 3B US prenatal sakrokoksigeal teratom tanısında 2B US'un tamamlayıcısı olduğunu düşünüyoruz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. C. Batukan, M. T. Ozgun, and M. Basbug, "First trimester diagnosis of sacrococcygeal teratoma using two- and three-dimensional ultrasound," *Journal of Clinical Ultrasound*, 2011, 39:160-163,
2. Avni FE, Guibaud L, Robert Y, Segers V, Zierysen F, Delaet MH, Metens T.MR imaging of fetal sacrococcygeal teratoma: diagnosis and assessment. *AJR Am J Roentgenol*. 2002; 178:179-183.
3. M. Sugitani, S. Morokuma, N. Hidaka "Three-dimensional power Doppler sonography in the diagnosis of a cystic sacrococcygeal teratoma mimicking a meningo-myelocoele: a case report," *Journal of Clinical Ultrasound*, 2009, 37: 410-413
4. Chisholm CA, Heider AL, Kuller JA, Von Allmen D, McMahon MJ, Chesneir NC. Prenatal diagnosis and perinatal management of fetal sacrococcygeal teratoma. *Am J Perinatol* 1999;16:47-50.
5. Outwater EK, Siegelman ES, Hunt JL Ovarian teratomas: tumor types and imaging characteristics. *Radiographics* 2001; 21:475-490
6. Hedrick HL, Flake AW, Crombleholme TM, Howell LJ, Johnson MP, Wilson RD, et al. Sacrococcygeal teratoma: prenatal assessment, fetal intervention, and outcome. *J Pediatr Surg* 2004;39: 430-8.
7. Kruslin B, Visnjic A, Cizmic A, Tomicic I, Kos M, Jukic S, Seiwerth S. DNA ploidy analysis and cell proliferation in congenital sacrococcygeal teratomas. *Cancer* 2000;89:932-937
8. Roman AS, Monteagudo A, Timor-Tritsch I, Rebarber A. First-trimester diagnosis of sacrococcygeal teratoma: the role of three-dimensional ultrasound. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2004; 23:612-4.
9. Bonilla-Musoles F, Machado LE, Raga F, Osborne NG, Bonilla F Jr. Prenatal diagnosis of sacrococcygeal teratomas by two- and three-dimensional ultrasound. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2002;19:200-5
10. C. P. Chen and J. C. Shih, "Prenatal visualization of the vasculature of fetal sacrococcygeal teratoma by three-dimensional color power angiography," *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, 2002; 20, 636-637
11. M. Sugitani, S. Morokuma, N. Hidaka. "Three-dimensional power Doppler sonography in the diagnosis of a cystic sacrococcygeal teratoma mimicking a meningo-myelocoele: a case report," *Journal of Clinical Ultrasound*, 2009; 37, 410-413.

How to cite this article:

Uysal F, Adam G, Reşorlu M, Baş S, Uysal A. The Usage of 2 and 3-Dimensional Ultrasound in Prenatal Diagnosis of Sacrococcygeal Teratoma: Report of a Case. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 123-5.



Endometriosis in the Rectus Abdominis Muscle: A Case Report

Rektus Abdominis Kası Yerleşimli Endometriozis: Olgu Sunumu

Rektus Kası Endometriozisi / Rectus Muscle Endometriosis

Taşcı Yasemin¹, Gelişen Orhan², Düzgüner Soner³, Gökçin Hakan⁴, Balin İpek Nur²

¹Department of Obstetrics and Gynecology, Zekai Tahir Burak Women's Health Teaching and Research Hospital,

²Department of Obstetrics and Gynecology, Etlik Zübeyde Hanım Women's Health Teaching and Research Hospital,

³Department of Obstetrics and Gynecology, Dr. Sami Ulus Women's Health Teaching and Research Hospital,

⁴Department of General Surgery, Etlik Zübeyde Hanım Women's Health Teaching and Research Hospital, Ankara, Turkey

Özet

Rektus abdominis kası yerleşimli endometriozis nadir görülen bir hastalıktır. Kliniğimizde rektus abdominis kası yerleşimli endometriozis tanısı ile cerrahi tedavi uyguladığımız olgunun klinik, radyolojik, histopatolojik özelliklerini değerlendirdik.

Anahtar Kelimeler

Ekstrapelvik Endometriozis; Rektus Abdominis Kası Yerleşimli Endometriozis; Skar Dokusunda Yerleşmiş Endometriozis

Abstract

Endometriosis involving the rectus abdominis muscle is a very rare disease. We present a case in whom endometriosis was found in the rectus abdominis muscle and discuss the imaging findings and histopathological correlation.

Keywords

Extrapelvic Endometriosis; Rectus Muscle Endometriosis; Scar Endometriosis

DOI: 10.4328/JCAM.2053

Received: 16.09.2013 Accepted: 01.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 126-8

Corresponding Author: Soner Düzgüner, Ministry of Health, Dr. Sami Ulus Women's Health Teaching and Research Hospital, Babur Street No:44 (06080)

Altındağ, Ankara, Turkey. T.: +90 3123056000 F.: +90 3123170353 E-Mail: sonerduzguner@yahoo.com

Introduction

Endometriosis is a benign gynecological condition characterized by endometrial tissue outside the uterine cavity and can occur at intra- or extrapelvic localizations. Endometriosis involving out of the pelvis is account for 12% of all endometriosis [1]. Endometrial implants have been reported in many unusual sites outside the pelvis including the abdominal wall. The abdominal wall endometriosis usually results from implantation of endometrial cells during laparotomy. Surgical scar endometriosis has an incidence of 0,03% to 0,4% [2]. We present a rare case that endometriosis involving the rectus abdominis muscle.

Case Report

A 23-year-old woman was presented with persistent right lower abdominal pain and abdominal mass ongoing for 2 years, but worsening in the last 3 months. She reported that the size of the mass seemed to enlarge with her menses, and it become more painful. Her history included two cesarean sections 5 and 2 years before. On physical examination, a palpated solid and tender mass measuring 3x2 cm was found at her well-healed Pfannenstiel scar close to the right side. Routine hematologic and biochemical results were normal. Preoperative CA125 level was 45.0 U/ml. There was no previous history of endometriosis. Pelvic examination and pelvic ultrasonography were normal. High resolution ultrasound of the abdominal wall using 12 MHz linear transducer has revealed 21x21 mm heterogeneous hypoechoogenic mass within the distal part of the right rectus abdominis muscle [Figure 1]. Based on the findings of lower

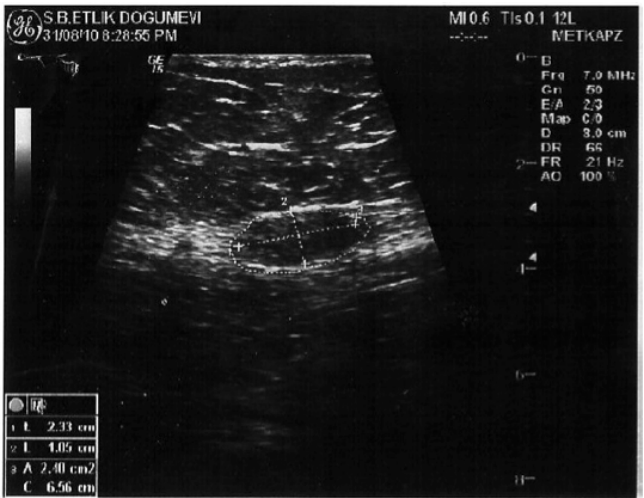


Figure 1. Ultrasound of soft tissues of the abdominal wall shows a heterogenous hypoechoogenic mass.

abdomen physical examination and superficial ultrasonography, we decided to surgical intervention. At operation, the mass with a dimension of 3 x 3 cm located inside the rectus muscle that contained dark red coloured fluid was removed including the surrounding fibers of the rectus abdominis and covering fascia of the rectus sheath. Fascial defect of the abdominal wall was repaired by using polypropylene mesh. There were no findings of pelvic endometriosis on abdominal exploration. Histological sections revealed endometrial glands surrounded by stroma and embedded in fibrous connective tissue between the muscle fibers with clear surgical resection margins (Figure 2). CA125 level were normal range after the operation. The patient was



Figure 2. Histopathology showing endometrial glands and stroma (black arrow) in muscle tissue

discharged from hospital on the 2nd postoperative day uneventfully.

Discussion

The extrapelvic endometrial implants have been detected in various organs. Abdominal wall endometriosis, also known as scar endometrioma, is a rare site of localization, usually occurring after previous cesarean section or pelvic surgery. It is thought to result from mechanical transplantation of endometrial tissue into scars during abdominal surgery [3]. The other possible theories in the development of extrapelvic endometriosis are retrograde menstruation, venous or lymphatic metastasis and metaplasia [4]. In present case report, endometriosis was found within the body of the rectus abdominis muscle at the right corner of the surgical scar. It is an unusual and rare localization for endometriosis since it was first described in 1984 by Amato and Levitt [5]. The cesarean section is the operation most frequently associated with abdominal wall endometriosis with an incidence that is reported as 0.03% to up to 1% [6]. Similar cases faced after hysterotomy, hysterectomy, early amniocentesis, appendectomy or episiotomy have also been reported [7,8]. The reason of this situation may be explained as transportation of endometrial tissue to an ectopic site firstly and then ectopic cells may induce metaplasia of the surrounding cells into the endometrial tissue [1]. It is also known that during pregnancy high level of serum progesterone impact negatively on endometriotic tissue growth and the implanted endometrium should be less prone to implant and proliferate at the ectopic site. A 20% of abdominal wall endometriosis is not associated with a previous surgery [9]. In this case possible mechanism can be explained as venous or lymphatic metastasis of endometrial cells [9]. The classical symptoms of abdominal wall endometriosis are cyclic pain associated with a palpable mass adjacent to a surgical scar. However, approximately 30% of the patients complain about constant pain in the scar area or some cases may present as an asymptomatic mass in the region of a surgical scar [10]. The mean period between the surgery and symptoms is about 18 months, but up to ten years after surgery [10] which was 2

years in our case.

Ultrasonography may be helpful in defining the cystic or solid nature of the mass and even exclude other intra-abdominal pathologies such as hernia. Suture granuloma, abscess, neuroma, desmoids tumor, hematoma, lymphadenopathy, subcutaneous cyst and metastatic cancer should be considered for differential diagnosis. Excision and histopathological evaluation of the mass is required for definitive diagnosis. Computed tomography guided needle aspiration may be used for selected cases, but it has been associated to an increased risk of recurrence [11].

The treatment of choice for rectus abdominis endometriosis is a wide local excision of the lesion with surgically negative margins. The use of synthetic mesh may be necessary for adequate closure of the abdominal wall. Recurrence of endometriosis in this area has rarely been reported but inadequate excision can lead to recurrence. GnRH agonists may also provide a temporary reduction in size of the endometriotic lesion, but it has been recommended only in cases with coexisting pelvic endometriosis [12].

In conclusion, endometriosis of the rectus abdominis muscle should be considered in the differential diagnosis in cases with painful abdominal wall mass with and without a surgical history.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Dordevic M, Jovanovic B, Mitrovic S, Dordevic G, Radovanovic D, Sazdanovic P. Rectus abdominis muscle endometriosis after cesarean section- Case report. *Acta Clin Croat* 2009; 48: 439-443.
2. Blanco RG, Parithivel VS, Shah AK, Gumbs MA, Schein M, Gerst PH. Abdominal wall endometriomas. *Am J Surg* 2003; 185(6): 596-598.
3. Giannella L, La Marca A, Ternelli G, Menozzi G. Rectus abdominis muscle endometriosis: Case report and review of the literature. *J Obstet Gynaecol Res* 2010; 36(4): 902-906.
4. Gunes M, Kayikcioglu F, Ozturkoglu E, Haberal A. Incisional endometriosis after cesarean section, episiotomy and other gynecologic procedures. *J Obstet Gynaecol Res* 2005; 13(5): 471-475.
5. Amato M, Levitt R. Abdominal wall endometrioma: CT findings. *J Comput Assist Tomogr* 1984; 8: 1213-1214.
6. Hensen JH, Van Breda AC, Puylaert JB. Abdominal wall endometriosis: Clinical presentation and imaging features with emphasis on sonography. *Am J Roentgenol* 2006; 186: 616-620.
7. Thapa A, Kumar A, Gupta S. Abdominal wall endometriosis: report of a case and how much we know about it? *Internet J Surg* 2007; 9: 123-128.
8. Loverro G, Mei L, Vicinio M, Cormio G, Selvaggi L. Umbilical endometriosis. *J Gynecol Surg* 2001; 17: 65-68.
9. Horton JD, Dezee KJ, Ahnfeldt EP, Wagner M. Abdominal wall endometriosis: A surgeon's perspective and review of 445 cases. *Am J Surg* 2008; 196: 207-212.
10. Picod G, Boulanger L, Bounoua F, Leduc F, Duval G. Abdominal wall endometriosis after cesarean section: report of fifteen cases. *Gynecol Obstet Fertil* 2006; 34(1): 8-13.
11. Coeman V, Sciote R, Van Breuseghem I. Rectus abdominis endometriosis: a report of two cases. *Br J Radiol* 2005; 78: 68-71.
12. Papaziogas T, Papaziogas B, Kabaroudis A, Galanis I, Lazaridis Ch, Souparis A, Alexandrakis A. Endometriosis of the rectus abdominis muscle after cesarean section. *Eur Surg* 2002; 34(3):203-205.

How to cite this article:

Yasemin T, Orhan G, Soner D, Hakan G, Nur Bİ. Endometriosis in the Rectus Abdominis Muscle: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 126-8.



Unusual Presentation of Alveolar Echinococ with Simultane Intramyocardial and Lung: Case Report

Nadir Görülen Eş Zamanlı İntramiyokardiyal ve Akciğer Yerleşimli Alveolar Ekinokokkus: Olgu Sunumu

Kardiyak Hidatik Kist / Cardiac Hydatid Cyst

Bayram Metin¹, Hüseyin Ede², Yavuz Selim İntepe³, Hasan Ekim⁴, Neziha Yılmaz⁵, Eşef Bolat⁶, Şener Yıldırım⁷

¹Bozok University Faculty of Medicine, Department of Thoracic Surgery, Yozgat, ²Bozok University Faculty of Medicine, Department of Cardiology, Yozgat,

³Bozok University Faculty of Medicine, Department of Chest Diseases, Yozgat, ⁴Bozok University Faculty of Medicine, Department of Cardiovascular Surgery, Yozgat,

⁵Bozok University Faculty of Medicine, Department of infectious diseases, Yozgat, ⁶Bozok University Faculty of Medicine, Department of Aneasthesiology, Yozgat,

⁷Yozgat State Hospital, Thoracic Surgery Clinic, Yozgat, Turkey

Özet

Alveolar kist hidatik (AKH) özellikle kuzey yarım kürede tilkilerden geçen Ecinokokkus Multilokularisin neden olduğu bir hastalıktır. Endemik bölgelerde insidansı 0.03-1.2/100 000 oranındadır. Karaciğer primer odak olarak bilinmesine rağmen akciğer, dalak, pankreas, retroperitoneal alan, beyin kemik ve yumuşak dokular da sık yerleştiği alanlardır. Pulmoner hidatik kist oranı % 7-20 olarak bilinmesine karşın eş zamanlı intramiyokardiyal ve akciğer tutulumu literatürde nadir görülen bir durumdur.

Anahtar Kelimeler

Alveolar Kist Hidatik; İntramiyokardiyal Tutulum; Kardiyopulmoner Cerrahi

Abstract

Alveolar echinococcosis (AE), observed in the Northern Hemisphere, is caused by the larval stage of the fox tapeworm Echinococcus multilocularis. In endemic areas, annual incidence of AE ranges from 0.03 to 1.2/100 000 inhabitants. The liver is the primary focus of the disease but extrahepatic is also possible such as lung, spleen, pancreas, retroperitoneum, brain, bone and soft tissue. While pulmonary involvements occur in 7 to 20%, to our best knowledge; simultaneous intramyocardial and lung involvement is a very rare clinical entity reported in the literature.

Keywords

Alveolar Echinococcosis; Intramyocardial Involvement; Cardiopulmonary Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.2042

Received: 04.09.2013 Accepted: 01.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 129-31

Corresponding Author: Bayram Metin, Bozok Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Göğüs Cerrahi ABD, Yozgat, Türkiye.

T.: +905072385361 E-Mail: drbaymet@hotmail.com

Introduction

Alveolar echinococcosis (AE), observed in the Northern Hemisphere, is caused by the larval stage of the fox tapeworm *Echinococcus multilocularis* [1]. Human is infected after ingesting eggs, the metacestode cells of *E. multilocularis* which proliferates in the liver [2]. It is a potentially fatal, chronically progressive parasitic infection characterized by a long asymptomatic period and development of an invasive tumor-like lesion throughout this period [3, 4]. So early diagnosis of AE is very difficult because of long latent or asymptomatic period which may be as long as 15 years [2-4]. In endemic areas, annual incidence of AE ranges from 0.03 to 1.2/100 000 inhabitants [2]. The liver is the primary focus of the disease but extrahepatic involvement such as lung, spleen, pancreas, retroperitoneum, brain, bone and soft tissue. While pulmonary involvements occur in 7 to 20%, to our best knowledge; simultaneous intramyocardial and lung involvement sparing liver is a very rare clinical entity reported in the literature [5, 6].

Here, we present a very rare case of alveolar echinococcosis with simultaneous intramyocardial and lung involvement sparing liver which was completely removed at the same session via cardiopulmonary surgery.

Case Report

A 47-year-old woman was admitted to our hospital with a history of hydropsy six months before admission. She didn't have any complaint otherwise. Physical examination did not reveal any abnormal findings: her lungs were normal on auscultation, no cardiac murmur or gallop rhythm was noted, and biochemical laboratory test results were within normal limits. Myocardial-specific enzyme values were within the normal range. The patient's chest X-ray was normal, except for increase in convexity on left border of the heart; and the lesion paratracheally located with sharp border, homogenous in content at upper zone of the left lung; and second one; sharp-bordered, paracardiac lesion with air-fluid content located at mid-zone of the left lung (Figure 1A). The Electrocardiography (ECG) showed normal

sinus rhythm with T-wave inversion in leads I, aVL. (Figure 2A) transthoracic echocardiography showed a multivesicular cystic mass on apical part of the left posterolateral ventricular wall and protruded inward the ventricular cavity (Figure 2B,2C). The

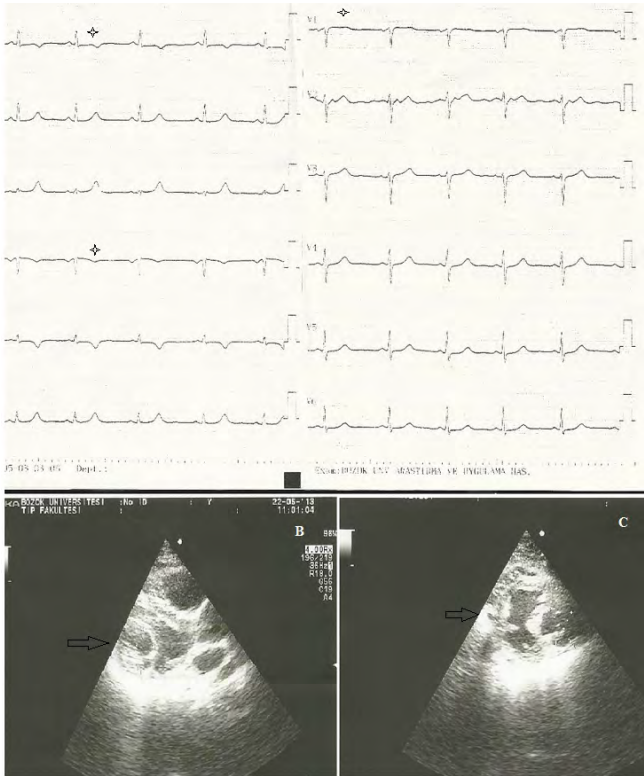


Figure 2. (A) The Electrocardiography showed normal sinus rhythm with T-wave inversion in leads I, aVL. (B-C) Transthoracic echocardiography showed a multivesicular cystic mass on apical part of the left posterolateral ventricular wall and protruded inward the ventricular cavity.

patient's abdominal ultrasonography and cranial computed tomography (CT) were normal. The patient's chest multislice CT and Magnetic Resonance Imaging (MRI) showed multivesicular cystic masses in the left ventricle lateral wall, at apical segment of the upper lobe of the left lung and at superior segment of the lower lobe of the left lung (Figure 1B-1D).

Serologically, specific *Echinococcus granulosus* and *multilocularis* antibodies were investigated by commercial ELISA (NovoLISA, *Echinococcus* IgG Novatec, Germany For *E. Granulosus*; Bordier Affinity Products SA, Switzerland for *E.multiculis*) and haemagglutination-inhibition test (HAI) (Hydatidose, Fumuoze laboratories, France) kits. *Echinococcus multilocularis* antibodies were positive with ELISA. Hydatid cyst antibodies was found to be positive 1/320 titer in the HAI.

The cardiac multivesicular cyst in the left ventricle wall was removed with cystotomy-capitonage procedure and then the cavity was washed with a hypertonic saline solution under cardiopulmonary bypass by conventional technique following median sternotomy. Gross appearance of the heart confirmed intramyocardial involvement (Figure 3A-D). Then, left pleural membrane was incised by using same median sternotomy and left lung was explored for location of the pulmonary cysts, firstly the cyst located paravertebrally at left upperlobe apical segment, and then secondly the one located at left inferior lobe superior segment were removed with cystotomy-capitonage procedure and then the cavity was washed with a hypertonic saline solution by thoracic surgeon. The patient didn't experience any



Figure 1. (A) Chest X-ray findings (B-C) Magnetic Resonance Imaging (MRI) revealed multivesicular cystic masses in the left ventricle lateral wall. (D) Chest multislice showed ruptured cyst in superior segment of the lower lobe of the left lung.

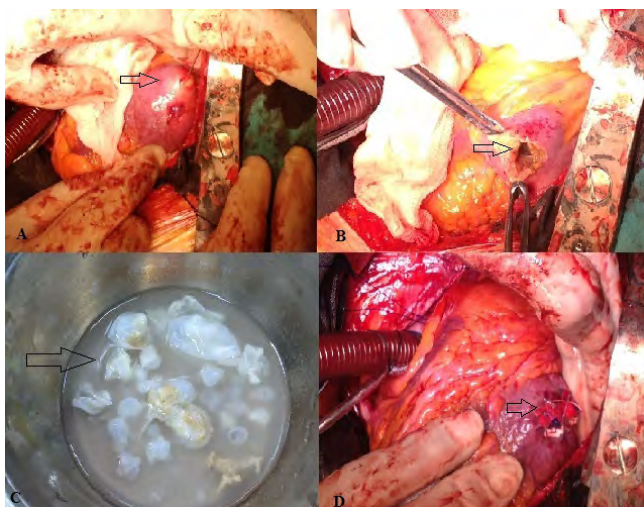


Figure 3. (A) The cardiac multivesicular cyst in the left ventricle wall was exposed, (B) cystotomy procedure was applied to the cardiac multivesicular cyst in the left ventricle wall and inner content of the cyst was evacuated, (C) The appearance of multivesicular cyst after removal, (D) Capitonage procedure was with primary suture.

complication early after operation and albendazole treatment was started immediately then after the surgery. The patient was discharged at sixth day postoperatively without any morbidity. And also she was under follow-up without any problem.

Discussion

Echinococcus multilocularis (*E. multilocularis*) is considered to be the most potentially lethal parasitic zoonosis in the nontropical areas in the Northern Hemisphere [6, 7]. Its invasive, tumor-like behaviour together with its long asymptomatic period to get clinical significance makes the alveolar echinococcosis potentially fatal disease. So early diagnosis is not possible in most of the cases. Cardiac echinococcosis is rare, representing only 0.5–2% of all cases [8]. Here, we reported a case of alveolar echinococcosis involving myocardium and lung sparing liver.

Chest pain, palpitations and dyspnea are the primary symptoms associated with cardiac echinococcosis [8, 9]. In our case those complaints never existed, so it supports also asymptomatic nature of the disease. That is so, whenever pulmonary cysts are in concern, exclusion of cardiac involvement should be always considered as we did in our case. But some clues can exist in ECG. In young patients from endemic areas, especially when the ECG shows a T-wave change, a diagnosis of cardiac echinococcosis should be suspected [8, 9]. In present case, T wave was negative at leads I, aVL. Since the patient didn't have any risk factor for coronary atherosclerosis, further investigation was not performed.

Pulmonary AE is mainly caused by hematogenous dissemination from hepatic AE lesions. Physical signs and symptoms in pulmonary AE are hydropneumothorax, chest pain, cough with expectoration and exertional dyspnea. Hydropneumothorax is very typical of lung involvement. If present, prompt search for hydatid disease should be started. However, the pulmonary AE caused by hematogenous spread and intrapulmonary enlargement of daughter cyst is usually asymptomatic for about 10–15 years [2–4, 10].

Due to invasive, tumor-like behaviour of AE, early surgical intervention is preferred method for total cure. For lung involvement which they don't have structures to limit cyst expansion, it is

more important. In case of the heart; the issue of whether beating heart technique or cardiopulmonary bypass by conventional method will be preferred should be discussed. In the literature, there are example for beating heart [11, 12]. But those cases with intracavitary involvement the cardiopulmonary bypass by conventional technique should be preferred. In our case, both MRI and echocardiographic findings was indicating intramyocardial involvement so the latter technique was used.

Along with the surgical treatment, currently the use of benzimidazoles for prevention of cyst recurrences is widely used. Albendazole is a benzimidazole that has been shown to be effective in the treatment of lung and intramyocardial hydatid disease and to prevent recurrence of cysts after operation on lungs and heart [11]. The patient also was given albendazole immediately after the surgery.

In our case, there was presence of simultaneous intramyocardial and pulmonary multivesicular-type cyst hydatid. Through same median sternotomy and with single incision, the patient was operated for both cardiac and pulmonary cyst at same session to get complete cure.

In this case, we reported a very rare case of alveolar echinococcosis with simultaneous intramyocardial and lung involvement sparing liver and we aimed to share our clinical experience in the management of the case.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Piarroux M, Piarroux R, Knapp J, et al. Populations at risk for alveolar echinococcosis, France. *Emerg Infect Dis*. 2013;19:721–8.
2. Nunnari G, Pinzone MR, Gruttadauria S, et al. Hepatic echinococcosis: clinical and therapeutic aspects. *World J Gastroenterol*. 2012;18:1448–58.
3. Craig P. *Echinococcus multilocularis*. *Curr Opin Infect Dis*. 2003;16: 437–44.
4. Pawlowski ZS, Eckert J, Vuitton D, et al. Echinococcosis in humans: clinical aspects, diagnosis and treatment. In: Eckert J, Gemmell MA, Meslin FX, Pawlowski Z (eds) *WHO/OIE Manual on echinococcosis in humans and animals: a public health problem of global concern*. World Organization for Animal Health and World Health Organisation, Paris, France, 2001. p.47–59.
5. Nell M, Burgkart RH, Gradl G, et al. Primary extrahepatic alveolar echinococcosis of the lumbar spine and the psoas muscle. *Ann Clin Microbiol Antimicrob*. 2011 Apr 15;10:13.
6. Kern P, Bardonnnet K, Renner E, et al. European echinococcosis registry: human alveolar echinococcosis, Europe, 1982–2000. *Emerg Infect Dis* 2003;9:343–9.
7. Rausch RL, 1995. Life cycle patterns and geographic distribution of *Echinococcus* species. In: RCA Thompson and AJ Lymbery (ed.) *Echinococcus and Hydatid disease*. CAB International, Wallingford, England. 1995.p.89–134.
8. Thameur H, Abdelmoula S, Chenik S, et al. Cardiopericardial hydatid cysts. *World J Surg* 2001; 25: 58–67.
9. Iltumur K, Karabulut A, Toprak N. Recurrent multiple cardiac hydatidosis. *Eur J Echocardiogr* 2005; 6: 294–6.
10. Aydınli B, Aydın U, Yazici P, et al. Alveolar echinococcosis of liver presenting with neurological symptoms due to brain metastases with simultaneous lung metastasis: a case report. *Türkiye Parazitoloj Derg*. 2008;32:371–4.
11. Djoshibaev S, Kudaiberdiev T, Maralov A, et al. Surgical treatment of isolated cardiac echinococcosis: report of five cases. *Anadolu Kardiyol Derg*. 2003;3:137–43.
12. Rossouw GJ, Knott-Craig CJ, Erasmus PE. Cardiac echinococcosis: cyst removal in a beating heart. *Ann Thorac Surg*. 1992;53:328–9.

How to cite this article:

Metin B, Ede H, Intepe YS, Ekim H, Yılmaz N, Bolat E, Yıldırım Ş. Unusual Presentation of Alveolar Echinococ with Simultaneous Intramyocardial and Lung: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 129–31.



Late Onset Isolated Traumatic Pneumomediastinum in a Child: A Case Report

Çocukta Geç Tespit Edilen İzole Travmatik Pnömomediastinum: Olgu Sunumu

Çocukta Travmatik Pnömomediastinum / Traumatic Pneumomediastinum in a Child

Ali Kemal Erenler¹, Latif Duran², Soner Dağlı¹, Özkan Öztürk¹, Oya Yıldız³

¹Hitit University Çorum Education and Research Hospital Department of Emergency Medicine, Çorum,

²Samsun Ondokuzmayıs University Department of Emergency Medicine, Samsun,

³Hitit University Çorum Education and Research Hospital Department of Thoracic Surgery, Çorum, Turkey

Özet

Pnömomediastinum (PM), mediasten içinde serbest hava veya gaz olması olarak tanımlanır. Pnömomediastinum, travmayla veya spontan olarak meydana gelebilir. Travmatik PM, sıklıkla künt toraks travması, kafa travması, endoskopi-bronkoskopi sonrasında (özefagus yırtılması, trakeobronşiyal yaralanma) ve mekanik ventilasyona bağlı olarak görülür. Künt travma sonrası PM, genellikle erişkinlerde, kosta kırığı, hemo-pnömotoraks ve torasik vasküler damar yaralanmalarıyla beraber görülen, yüksek enerjili travma sonrası oluşan ölümcül bir durumdur. Biz yazımızda, çocukta geç başlangıçlı travmatik PM olgusu sunduk ve bu ölümcül yaralanmanın acil serviste tanısının zorluk ve önemini vurguladık.

Anahtar Kelimeler

Travma; Pnömomediasten; Çocuk; Geç Tanı

Abstract

Pneumomediastinum (PM) is defined as the presence of gas or free air in mediastinum. Pneumomediastinum may occur either by trauma or spontaneously. Traumatic PM is frequently seen after blunt thoracic trauma, head trauma, after endoscopy-bronchoscopy (esophagus perforation, tracheobronchial injury) and due to mechanical ventilation. Pneumomediastinum after blunt trauma is a lethal injury that generally occurs in adults with concomitant injuries such as rib fractures, hemo-pneumothorax and thoracic vascular injuries after high-energy traumas. We represent case report of a late onset isolated traumatic PM in a child and aim to underline the difficulty and importance of diagnosis of this lethal injury in the emergency department.

Keywords

Trauma; Pneumomediastinum; Child; Late Detection

DOI: 10.4328/JCAM.2038

Received: 28.08.2013 Accepted: 01.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 132-4

Corresponding Author: Latif Duran, Ondokuz Mayıs University, Faculty of Medicine, Emergency Medicine, 55200, Samsun, Turkey.

T.: +90 3623121919/3111 F.: +90 3624576041 E-Mail: lduran@omu.edu.tr, mlduran@gmail.com.tr

Introduction

Traumatic pneumomediastinum (PM) has been reported up to 10% of patients who have sustained severe blunt thoracic trauma. It is a relatively uncommon injury after trauma to the neck, thorax, or abdomen but may be a significant cause of morbidity and mortality in affected individuals because of the associated damage to the esophageal, and tracheobronchial, or vascular thoracic structures [1,2,3]. In this report, we represent you a 15-year-old male patient with isolated traumatic PM whose initial computerized tomography (CT) scan was normal.

Case Report

After a motorcycle accident, a 15-year-old boy was brought to our emergency department (ED). According to the anamnesis, he has lost the control of the vehicle and fallen from it. On admission, his vital signs were normal, he had a clear consciousness and had no sign of trauma on his body in inspection. On physical examination, no abnormalities were determined. His blood and urine samples were taken, standart X-ray imaging for trauma was performed and, to exclude a possible occult injury due to high energy trauma, brain, cervical, thorax and abdomen CT scannings were performed in order to determine possible fatal injuries. After evaluation of the X-ray and CT scan images (fig. 1), they were all reported as normal. Also no abnormalities

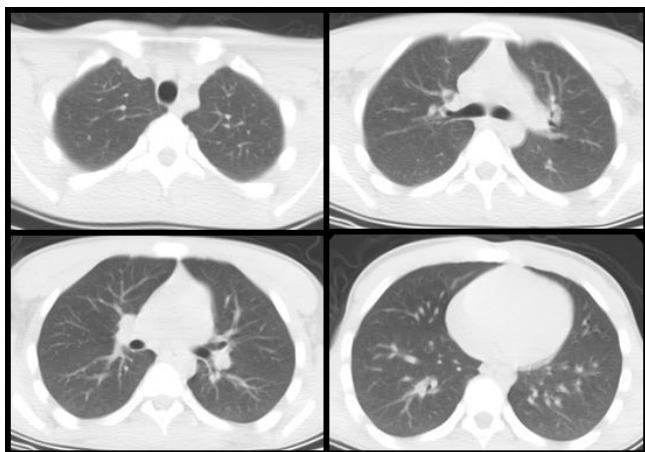


Fig 1. A normal CT scan of the patient on admission (parenchymal window).

were determined in laboratory studies except an elevated muscle enzyme creatine kinase (CK). It was high due to trauma and its level was 481 U/L (0-171). After a 9-hour follow-up in the emergency observation room, no reduction in hemoglobin levels which were taken every 3 hours was determined. No changes in mental status and vital signs were observed in the follow-up period. Patient was discharged from ED without any complaints. The next day, the same patient was admitted to the ED for a mild pain on chest while breathing. The vital signs and physical examination were normal. His recent CT scan was evaluated again for a missed hemopneumothorax or pneumomediastinum and reported as normal again.

In second admission, patient had a chest radiograph abdominal ultrasonographic examination and a subsequent chest CT scan as part of the initial diagnostic assessment for a possible late onset of intraperitoneal hemorrhage, traumatic hemothorax, pneumothorax or pneumomediastinum. Free air images are observed around esophagus and vascular structures (fig. 2). Pa-

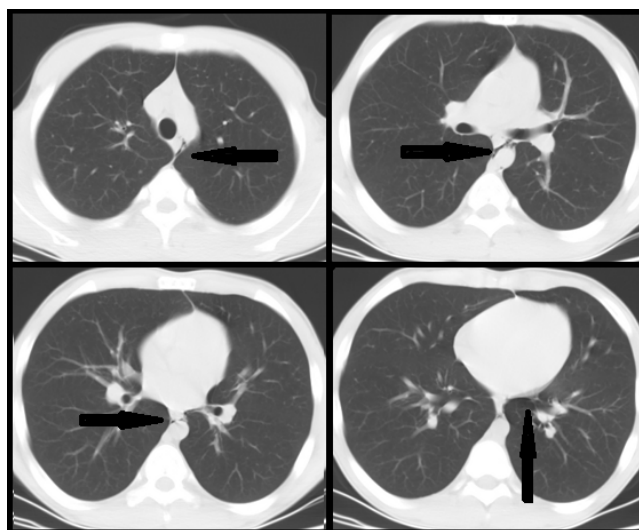


Fig 2. A CT scan of the patient on secondary admission (parenchymal window). Black arrows demonstrate air leak in paraesophageal region in middle and upper mediastinum which is correlated with pneumomediastinum

tient was consulted with pediatric surgery and thoracic surgery and transferred to an advance center treatment of PM. He was hospitalized with esophagus rupture prediagnosis. After a follow-up of 7 days, pneumomediastinum regressed in control CT images and the patient was discharged with total cure.

Discussion

Pneumomediastinum is defined as the presence of gas or free air in mediastinum. Pneumomediastinum may occur either by trauma or spontaneously. Traumatic PM is frequently seen after blunt thoracic trauma, head trauma, after endoscopy-bronchoscopy (esophagus perforation, tracheobronchial injury) and due to mechanical ventilation [4]. Pneumomediastinum has been reported in up to 10% of patients who have sustained severe blunt thoracic trauma and may be a significant cause of morbidity and mortality in affected individuals because of the associated damage to the esophagus or trachea [1,2]. Intrathoracic perforation of the esophagus from blunt trauma is extremely rare in children and often occurs in adults as a result of high-speed motor vehicle accidents. Possible mechanisms of esophageal rupture from blunt trauma are as follows; rapid rise in intraluminal pressure against a closed glottis resulting in disruption of the wall of the esophagus, disruption of the esophageal blood supply by deceleration-traction injury producing ischemia leading to rupture, and "blast effect" disruption of the esophagus produced by a concomitant tracheal injury in cases of combined tracheal and esophageal trauma [5]. There is another theory for delayed onset PM after blunt trauma. According to this theory, ischemic injury secondary to deceleration that disrupts the segmental arterial supply and leads to a delayed perforation [6]. Even though the time is quite short, this theory may explain the delayed onset in our case.

Traumatic PM secondary to blunt chest injury is concerning for potential life-threatening tracheobronchial, esophageal or vascular thoracic injuries. In a study with 193 patients by Step et al., it was reported that all patients with traumatic PM had significant thoracic injuries (e.g., rib fractures, and hemothorax), which would have been evident on X-ray [7]. In a study, it was reported that PM was associated with other thoracic inju-

ries such as tracheobronchial lacerations, pneumothoraces and pulmonary contusions [5]. In our case, there were not any concomitant injuries. An isolated traumatic PM was determined. Besides, our case occurred in an unusual age group as PM is frequently seen in adults after high energy trauma.

Esophagography is the initial method of choice in the evaluation of esophageal lesions. Paraesophageal manifestations of esophageal rupture may be defined by thoracic CT. We chose to use CT technique in our case. On admission CT was totally normal but on the other day, when patient visited our ED, PM was defined with control CT. At the advanced center, CT after oral contrast was also performed but no leak of contrast could be observed. It was reported before that it is not always possible to determine the exact location of the rupture with radiological studies after contrast [8].

Traumatic PM may be treated by several ways. Non operative treatment is an option and other options are primary repair, esophagectomy, and exclusion and diversion. Delayed diagnosis and treatment markedly increases the morbidity and mortality particularly in adults [5]. Our case was treated non operatively and a total cure was obtained.

Conclusion

Pneumomediastinum after blunt trauma usually occur in adults with concomitant lethal injuries after high-energy traumas such as motor vehicle accidents. Methods of diagnosis and treatment may vary. Diagnosis is relatively difficult due to accompanying radiological findings which may distract the physician. A good follow-up may reduce the risk of missing the diagnosis. In this report, we presented a child with isolated late-onset PM after blunt trauma and aimed to underline the importance of this lethal finding which can be easily misdiagnosed, particularly when occur unaccompanied.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Wintermark M, Wicky S, Schnyder P, et al. Blunt traumatic pneumomediastinum: using CT to reveal the Macklin effect. *AJR* 1999;172:129-130.
2. Wintermark M, Schnyder P. The Macklin effect: a frequent etiology for pneumomediastinum in severe blunt chest trauma. *Chest* 2001;120: 543-547.
3. Bejvan SM, Godwin JD. Pneumomediastinum: old signs and new signs. *Am J Roentgenol*. 1996;166:1041-1048.
4. Lopez, M.F., Roldan, J.S. Cervical emphysema, pneumomediastinum, and pneumothorax following self-induced oral injury. *Chest*. 2001;120: 306-309.
5. Sartorelli KH, McBride WJ, Vane DW. Perforation of the intrathoracic esophagus from blunt trauma in a child: case report and review of the literature.. *J Pediatr Surg*. 1999;34:495-497.
6. Monzón JR, Ryan B. Thoracic esophageal perforation secondary to blunt trauma. *J Trauma* 2000;49:1129-1131.
7. Pryor SD, Lee LK. J Clinical outcomes and diagnostic imaging of pediatric patients with pneumomediastinum secondary to blunt trauma to the chest. *Trauma*. 2011;71:904-908.
8. Moreno-Ramos D, Serrano BV. Distal esophageal perforation secondary to blunt trauma diagnosed by computed tomography. *European Journal of Radiology Extra*. 2004;51: 109-111.

How to cite this article:

Erenler AK, Duran L, Dağlı S, Öztürk Ö, Yıldız O. Late Onset Isolated Traumatic Pneumomediastinum in a Child: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 132-4.



Invagination Associated with Ileocecal Duplication Cyst: A Case Report

İleoçekal Duplikasyon Kistine Bağlı Gelişen İnvajinasyon; Bir Olgu Sunumu

İleoçekal Duplikasyon Kisti / Ileocecal Duplication Cyst

Şirin Başpınar¹, Nermin Karahan¹, Mustafa Çelik², Olga Koçkar³
¹Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı,
²Isparta Doğum ve Çocuk Bakımevi Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Bölümü,
³Isparta Doğum ve Çocuk Bakımevi Hastanesi, Radyoloji Bölümü, Isparta, Türkiye

Bu olgu sunumu 29 Eylül-3 Ekim 2010 tarihleri arasında Eskişehir'de düzenlenen 20. Ulusal Patoloji Kongresi'nde poster bildirisi olarak sunulmuştur.

Özet

Duplikasyon kistleri nadir görülen konjenital anomalilerdir. Gastrointestinal sistemde herhangi bir yerde gelişebilmelerine rağmen en sık ince barsakta, özellikle ileumda sık izlenirler. Çekumda duplikasyon kistleri oldukça nadirdir. Çoğu yaşamın ilk yılında görülür. Neonatal barsak obstrüksiyonu, intusepsiyon, ele gelen kitle en belirgin bulgulardır. Burada 6 aylık erkek olguda ileoçekal duplikasyon kistine bağlı gelişen intestinal invajinasyon olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Duplikasyon Kisti; Çekum; İnvajinasyon

Abstract

Duplication cysts are rare congenital anomalies. Even though they may develop anywhere along the alimentary tract, they occur most frequently in the small intestine, especially the ileum. Duplication cysts of the cecum, is extremely rare. Most duplication cysts manifest during the first year of life. Neonatal bowel obstruction, intussusception, palpable mass are common presentations of duplication cysts. Here we report a case of a 6-month-old boy with an intestinal invagination caused by a ileocecal duplication cyst.

Keywords

Duplication Cyst; Cecum; Invagination

DOI: 10.4328/JCAM.2061

Received: 21.09.2013

Accepted: 04.10.2013

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 135-7

Corresponding Author: Şirin Başpınar, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi Tıbbi Patoloji Anabilim Dalı, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119290 F.: +90 2462371762 E-Mail: sirinbaspinar@gmail.com

Giriş

Duplikasyon kistleri gastrointestinal sistemin nadir görülen konjenital malformasyonlarından biridir [1]. Gastrointestinal sistemin herhangi bir yerinde gelişebilmelerine rağmen en sık ileumda izlenirler [1]. Çoğu yaşının ilk bir yılında görülür [1]. Perforasyon, barsak obstrüksiyonu, kanama ve invajinasyon gibi komplikasyonlar gelişebilir [2]. Genellikle mezenterik kısımda yerleşim gösteren duplikasyon kistleri ektopik gastrik mukoza veya pankreas dokusu içerebilirler [2].

Burada 6 aylık erkek olguda ileoçekal duplikasyon kistine bağlı gelişen invajinasyon olgusu literatür bilgileri eşliğinde sunulmuş, bu nadir lezyonun histopatolojik özellikleri ve ayırıcı tanısı tartışılmıştır.

Olgu Sunumu

Ateş ve kusma şikayetleriyle getirilen 6 aylık erkek olgunun fizik muayenesinde batın sağ alt kadranda kitle tesbit edildi. Laboratuvar bulgularında lökositoz dışında anormal değerler saptanmadı. Yapılan batın USG'de sağ alt kadranda 32 mm çapında kalın cidarlı kistik lezyon izlendi (Şekil 1). Barsak segmentlerinin bu lezyonun içine doğru uzandığı dikkati çekti.



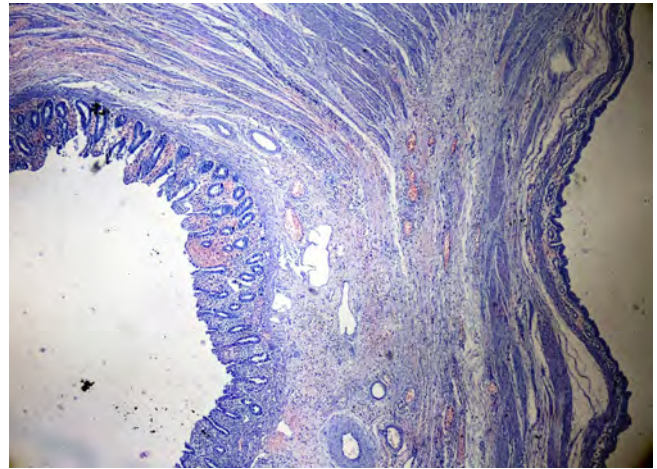
Şekil 1. Kalın cidarlı kistik lezyonun USG görüntüsü

Klinik ve radyolojik bulgular eşliğinde invajinasyon olarak değerlendirilen olguya öncelikle USG eşliğinde hidrostatik redüksiyon uygulandı. İnvajinasyonun tam olarak gerilememesi üzerine laparotomi uygulanan olguda ileoçekal bölgede kistik kitlenin saptanması üzerine segmental barsak rezeksiyonu ve ileo-kolik anastomoz yapıldı.

Rezeksiyon materyalinin makroskopik incelemesinde barsağın mezenterik kısmında lokalize lümeni tama yakın daraltan 3.2x2.5x2.2 cm ölçülerinde kistik lezyon izlendi. Kesitlerde kistik lezyonun uniloküle, iç yüzeyinin gri beyaz renkte düzgün yüzeyli olduğu ve içinden müsinöz berrak sıvının boşaldığı dikkati çekti. Mikroskopik incelemede komşu barsak dokusu ile kas tabakası ortak olan kistik lezyonda tek katlı kolumnar yüzey epiteli altında kolumnar hücrelerle döşeli az sayıda tubuler glandüler yapılar görüldü (Şekil 2). Histomorfolojik ve klinik bulgular eşliğinde olgu duplikasyon kisti olarak değerlendirildi. Operasyon sonrası sorunsuz seyreden olgu 4. gün taburcu edildi.

Tartışma

Gastrointestinal duplikasyonlar gastrointestinal sistemde ağız-



Şekil 2. Barsak dokusu ile kas tabakası ortak olan, tek katlı kolumnar yüzey epiteli altında kolumnar hücrelerle döşeli az sayıda tubuler glandüler yapılar içeren kistik lezyon (HEX40)

dan anüse kadar herhangi bir yerde görülebilen nadir konjenital anomalilerdir. Prevelansının 1:4500- 1:10000 arasında olduğu düşünülmektedir [1,2]. Etiyolojisinde fetal barsak divertikülünün persistansı, primitif barsağın solid evresinin rekanalizasyonunda defekt, parsiyel çiftleşme, notokord ayrılması gibi teoriler ile sürülmektedir [2]. Bu gelişimsel anomali en sık ileumda görülmekle beraber, özofagus, duodenum ve rektumda daha az sıklıkta izlenir [2,3]. Çekum yerleşimli olanlar oldukça nadirdir [2]. Duplikasyonlar makroskopik olarak sferik kistler ve tubuler yapılar şeklinde olabilirler [2]. Duvarlarında iyi gelişmiş düz kas içermeleri, sindirim sisteminin bir kısmının epiteline benzer bir epitel ile kaplı olmaları, barsak duvarı içinde ya da komşuluğunda yerleşim göstermeleri en belirgin özellikleridir [4]. Kistin duvarında gastrik, skuamöz, transisyonel epitel, pankreas dokusu ve ganglion hücreleri gibi ektopik doku bulunabilir [2]. Olgumuzda komşu barsak dokusu ile kas tabakası ortak olan kistik lezyonda intestinal epitel altında kolumnar hücrelerle döşeli az sayıda tubuler glandüler yapılar görüldü. Ektopik doku izlenmedi.

Duplikasyon kistleri her yaş grubunda görülebilmelerine rağmen, çocuklarda özellikle infantil dönemde daha sık izlenirler [1]. Barsak lümenine bası sonucu obstrüksiyon, invajinasyon ve volvulusa neden olabilirler. Hastalarda karın ağrısı, kusma, palpe edilebilen kitle ya da akut gastrointestinal kanama gibi klinik bulgular izlenir [2]. Kist duvarı heterotopik mide mukozası içeriyorsa asit sekresyonuna bağlı ülserasyon, perforasyon ve kanama izlenir [5]. Klinik bulgular lezyonun yerleşim yeri, boyutu ve döşeyici mukozaya bağlı olarak değişkenlik gösterebilir. Literatür bilgileriyle uyumlu olarak 6 aylık olgumuzda ateş ve kusma şikayetleri yanısıra batın sağ alt kadranda kitle tesbit edildi. Ülserasyon, perforasyon ve kanama gibi bulgular izlenmedi. Erişkinde duplikasyon kisti zemininde gelişen maligniteler bildirilmiştir. Inoue ve Nakamura [6] duplikasyon kisti zemininde malignite gelişen 18 olguyu inceleyerek en yüksek sıklıkta (% 67) kolonda görüldüğünü bildirmişlerdir. Malignite gelişimine kist içerisinde bulunabilecek ektopik gastrik dokunun veya sekresyon stazının yol açabileceği düşünülmektedir [6]. Duplikasyon kistleri vertebral veya ürogenital malformasyonlar gibi diğer konjenital anomaliler ile birlikte görülebilirler. [2]. Olgumuzda duplikasyon kistine başka bir konjenital anomali eşlik etmemektedir.

Bu yaş grubunda ayırıcı tanıda düşünülmesi gereken bir diğer

lezyon Meckel divertikülüdür. Omfalomezenterik kanalın intra-uterin dönemde kapanmaması sonucu gelişen Meckel divertikülü duplikasyon kistine göre gastrointestinal sistemde (%1-3) daha sık rastlanan konjenital anomalidir [7]. Duplikasyon kistinden farklı olarak ileoçekal valvin proksimalinde, antimezen-terik yüzde bulunur [7]. Genellikle 2 yaşından önce semptomatik hale gelen Meckel divertikülünde intestinal obstrüksiyon, ülser, kanama, perforasyon veya divertikülit gibi komplikasyonlar görülebilir [7]. Olguların bir kısmında ektopik gastrik veya pankreatik dokular bulunabilir [7]. Olgumuzda ileoçekal bölgede mezenterik kısımda yerleşim gösteren kistik lezyonda ektopik mu-koza izlenmedi.

İnfan-til dönemde ani ve beklenmeyen ölüm sebepleri arasında solunum sistemi ve kardiyovasküler hastalıklar ilk sıralardayken, invaginasyon ve volvulus gibi gastrointestinal nedenlere bağlı ölümler sık değildir. Bununla beraber duplikasyon kistine bağlı gelişen intestinal obstrüksiyon sonucu ölüm vakası bildirilmiştir [8]. Bu nedenle nadir görülen ve hayatı tehdit edebilecek bir lezyon olan duplikasyon kisti infan-til intestinal obstrüksiyonların ayırıcı tanısında akılda tutulmalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı be-yan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Robert G, Holcomb G, Sidney F. Duplications of the alimentary tract. *Pediatrics* 1952; 9: 449-68.
2. Macpherson RI. Gastrointestinal tract duplications: Clinical, pathologic, etiologic, and radiologic considerations. *Radiographics* 1993; 13: 1063-80.
3. Hoshino I, Maruyama T, Fukunaga T, Matsubara H. Intussusceptions associated with an ileal duplication cyst. *Intern Med*. 2011; 50(11): 1255.
4. Berrocal T, Lamas M, Gutierrez J, Torres I, Prieto C, del Hoyo ML. Congenital anomalies of the small intestine, colon, and rectum. *Radiographics* 1999; 19: 1219-36.
5. Wyllie R. Intestinal duplications, meckel diverticulum, and other remnants of the omphalomesenteric duct. In: Behrman RE, Kliegman RM, Jenson HB, editors. *Nelson Textbook of Pediatrics*. 17th ed. Philadelphia: Saunders; 2004. p.1236-7.
6. Inoue Y, Nakamura H. Adenocarcinoma arising in colonic duplication cysts with calcification: CT findings of two cases. *Abdom Imaging* 1998; 23: 135-7.
7. St-Vil D, Brandt ML, Panic S, Bensoussan AL, Blanchard H. Meckel's diverticulum in children: a 20-year review. *J Pediatr Surg* 1991; 26: 1289-92.
8. Kibayashi K, Sumida T, Shoji H, Tokunaga O. Unexpected death due to intestinal obstruction by a duplication cyst in an infant. *Forensic Science International* 2007; 173: 175-7.

How to cite this article:

Başpınar Ş, Karahan N, Çelik M, Koçkar O. Invagination Associated with Ileocecal Duplication Cyst: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 135-7.



Primary Testicular Lymphoma: Two of Case Reports

Primer Testis Lenfoması: İki Olgu Sunumu

Primer Testis Lenfoması / Primary Testicular Lymphoma

Recep Bedir¹, İbrahim Şehitoğlu¹, Afşin Rahman Mürtezaoğlu¹, Muhammed Yayıtkıl², Hakkı Uzun³
¹Recep Tayyip Erdoğan Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, ²Rize Devlet Hastanesi, Üroloji Kliniği
³Recep Tayyip Erdoğan Üniversitesi Tıp Fakültesi, Üroloji Anabilim Dalı, Rize, Türkiye

Özet

Primer testis lenfoması nadir görülmekte olup, tüm testis malignitelerinin %1-9'unu oluşturmaktadır. Nadir görülmesine rağmen 60 yaş üzerindeki hastalarda en sık görülen testis tümörüdür. En sık görülen histolojik alt tip diffüz büyük B hücreli non-Hodgkin lenfomadır. En sık rastlanan belirtisi, ağrısız skrotal şişliktir. Prognozu belirleyen en önemli parametre evredir. Prognozu diğer testis tümörlerinden daha kötüdür. Standart bir tedavi şekli olmayıp, genellikle erken evrede orşiektomi sonrası doksorubisinli kemoterapi uygulanması önerilmektedir. Bizde bölümümüzde son 4 yıl içinde görülen iki olguyu burada literatür eşliğinde sunduk.

Anahtar Kelimeler

Testis; Lenfoma; İmmünohistokimya

Abstract

Primary testicular lymphoma is a rarely testicular tumor which accounts for 1-9% of all testicular malignants. Despite this low overall incidence, it is the most common testicular malignancy over the patient age of 60. Diffuse large B cell lymphoma is the most common histological subtype. The most common presentation is painless scrotal mass. Clinical stage is the most important prognostic factor. The prognosis is worse than other testicular tumors. There is no standard protocol to treatment which chemotherapy with doxorubicin based following orchiectomy is recommendation in early stage. Herein we presented two cases in the last 4 years in our department with the literature.

Keywords

Testis; Lymphoma; Immunohistochemistry

DOI: 10.4328/JCAM.2056

Received: 18.09.2013 Accepted: 07.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 138-41

Corresponding Author: Recep Bedir, Recep Tayyip Erdoğan Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Rize, Türkiye.

T.: +90 4642130491 F.: +90 4642170364 GSM: +905057331695 E-Mail: bedirrecep@gmail.com

Giriş

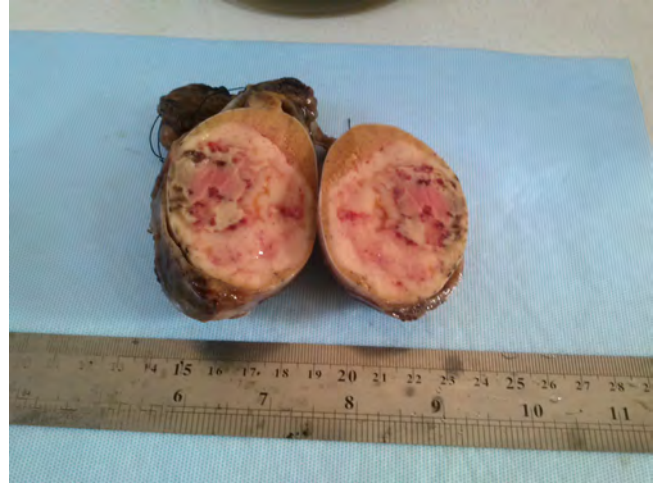
Lenfomalar bütün testiküler tümörlerin %3-5'ini oluştururlar. Testiküler lenfomalar agresif seyirli ektranodal lenfomalar olup, genellikle non-Hodgkin lenfomalar primer veya sekonder olarak görülürler [1]. Diffüz büyük B hücreli lenfoma (DBBHL) en sık görülen histolojik tipdir. Genellikle ileri yaşlarda görülmekte olup, 60 yaşın üzerinde en sık görülen testis malignitesidir [2]. Primer testis lenfomaları (PTL), genellikle tek taraflı olup, boyutları değişkendir. Bazen büyüyerek rete testise, epididime, tunika albugineaya ve nadiren spermatik korda yayılım gösterebilirler. Sıklıkla cilt, santral sinir sistemi ve Waldeyer halkası gibi ektranodal bölgelerde tutulum saptanır. Daha nadir olarak ise akciğer, kemik, karaciğer, gastrointestinal sistem ve özellikle paraaortik lenf nodlarında nüks görülebilir [3]. PTL olguların %57'si Evre I, %22'si Evre II ve %21'i ise Evre III-IV olarak karışımıza çıkmaktadır. Nordice lenfoma grubu tarafından modifiye edilen PTL'da Evre I, tek taraflı testis tutulumu, epididim ve kord tutulumu ile birlikte olan ve olmayan, Evre II, abdominal ve pelvik lenf nodu tutulumu, Evre III-IV ise uzak metastaz olarak evrelendirilmiştir [2]. Bizde nadir görülen PTL olarak rapor ettiğimiz iki olguyu, histopatolojik ve immünohistokimyasal bulguları ile birlikte sunuyoruz.

Olgu Sunumu 1

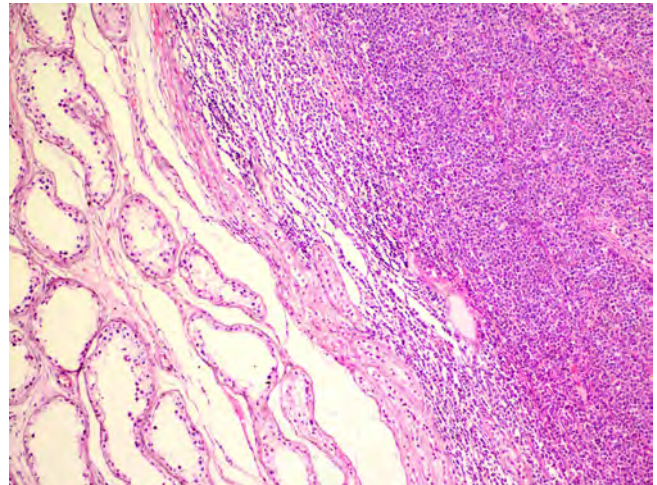
Ellidört yaşında erkek hasta son bir aydır artan sol skrotal şişlik nedeni ile üroloji polikliniğine başvurdu. Yapılan fizik muayenede sol testiste yaklaşık 5 cm çapında sert ve ağrısız kitle tespit edildi. Yapılan skrotal ultrasonografide, sol testis içinde yerleşik 50x34x42 mm boyutlarında, testisi tama yakın dolduran sınırlı hipoeoik heterojen, yoğun vaskülarizasyon gösteren kitlesel lezyon izlenmiştir. Preoperatif tümör markırları AFP: 2.9 U/L, β -hCG: 0 U/L ve LDH: 533 U/L (normali:190-380) olarak bulundu. Preoperatif testis tümörü tanısı ile sol inguinal orşiektomi yapıldı. Makroskopik incelemede, orşiektomi materyalinin kesit yüzeyinde testisi tama yakın dolduran gri-beyaz solid tümöral kitle izlendi (Resim 1). Mikroskopik incelemede, testis dokusunu ortadan kaldıran, diffüz infiltrasyon gösteren iri veziküler nükleuslu, belirgin nükleoluslu bol sayıda mitotik aktivite gösteren atipik lenfoid hücrelerden oluşan tümör izlendi. Tümörün kenarında normal görünümde seminifer tübüller mevcuttu (Resim 2, 3). Yapılan immünohistokimyasal incelemede, neoplastik hücrelerde LCA(CD45) ve CD20 ile güçlü diffüz pozitif (Resim 6) boyanma gözlemlendi (Resim 4). PLAP (plasental alkalen fosfataz) ve CD3 ile boyanma saptanmadı. Tümörün Ki-67 proliferasyon indeksi oldukça yüksek olarak bulundu (%80 üstünde) (Resim 5). Tümör tunika albugineayı invaze etmiş olup, epididim ve spermatik kord invazyonu saptanmadı. Morfolojik ve immünohistokimyasal bulgular ile olguya diffüz büyük B hücreli lenfoma tanısı konuldu. Hastanın başka bölgelerinde lenfomayı düşündürecek bulgu saptanmaması nedeni ile primer olarak kabul edildi. Batın bilgisarlı tomografide pelvik ve abdominal metastatik lenf nodu saptanmayan hasta Evre I olarak kabul edildi. Hastanın tedavisinin planlanması için medikal onkolojiye devredildi.

Olgu Sunumu 2

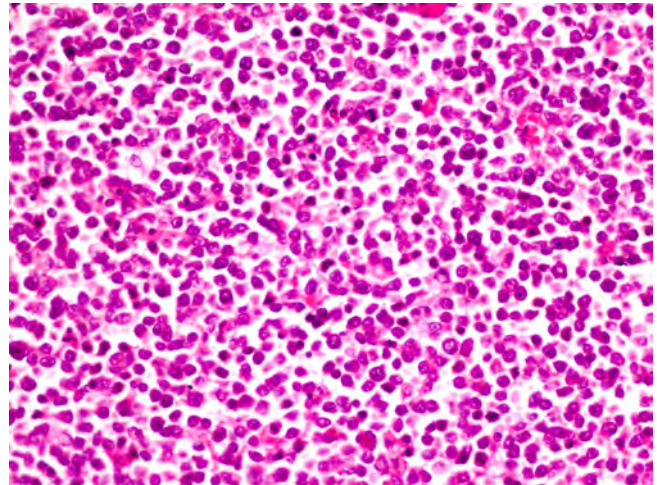
Yetmiş sekiz yaşında erkek hasta, yaklaşık 1 aydır devam eden ve şiddeti son günlerde artan, sol inguinal bölgeye de yayılım gösteren karın ağrısı şikayetiyle hastanemiz acil polikliniğine



Resim 1. Testisi dolduran gri-beyaz solid tümöral kitle

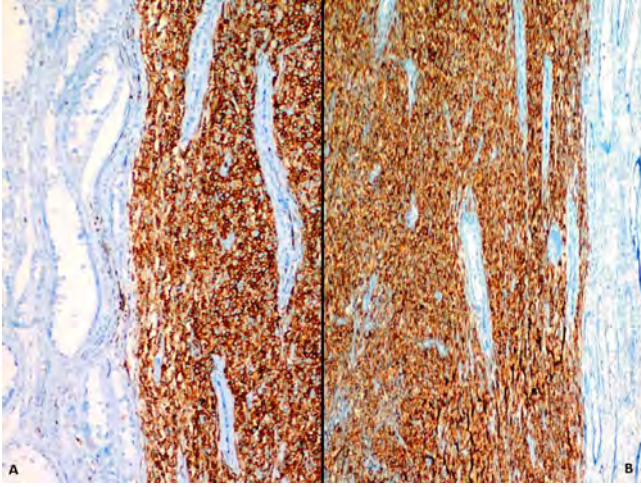


Resim 2. Seminifer tübüller komşuluğunda diffüz tümöral infiltrasyon (H&Ex100)

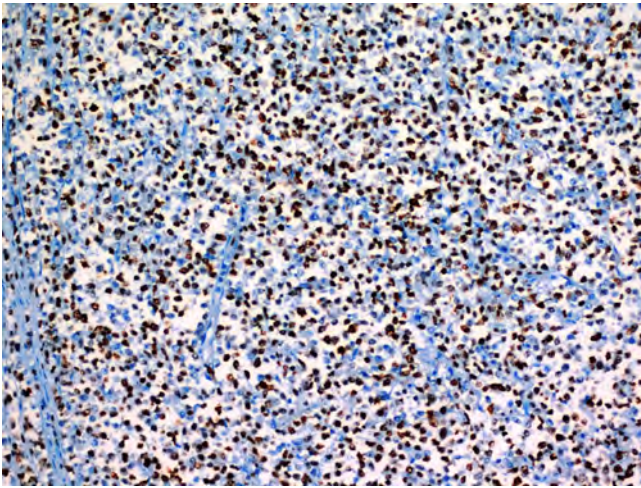


Resim 3. İri hiperkromatik nükleuslu, belirgin nükleoluslu bol mitoz gösteren atipik lenfoid hücreler (H&Ex400)

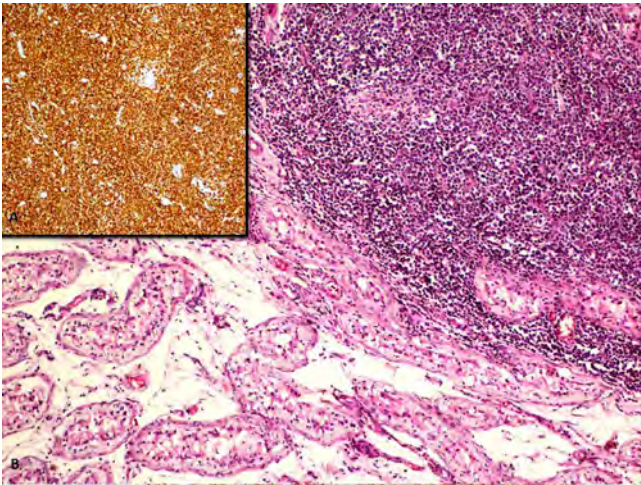
başvurdu. Yapılan ultrasonografik incelemede sol testisin boyutlarının sağ testise göre arttığı ve içerisinde hipoeoik, solid karakterde yapıların tespit edilmesi nedeniyle olgu üroloji bölümüne refere edildi. Yapılan biyokimyasal incelemede LDH yüksekliği (1019 U/L) dışında patolojik bulgu saptanmadı. Hasta testiste malign kitle ön tanısı ile opere edildi. Patoloji bölümümüze olguya ait 7.5x5.5x4 cm boyutlarında sol inguinal orşiektomi materyali geldi. Makroskopik incelemede testis kesitlerinde 5x3.5 cm boyutlarda gri-sarı renkte, solid görünümde,



Resim 4. Tümörde LCA ile diffüz pozitif boyanma (LCAx100) (A), Tümörde CD20 ile diffüz pozitif boyanma (CD20x100) (B)



Resim 5. Tümörde yüksek Ki-67 proliferasyon indeksi (Ki-67x200)



Resim 6. CD45 ile diffüz pozitif boyanma (CD45x100) (A), Seminifer tubüller komşuluğunda diffüz infiltrasyon gösteren atipik lenfoid hücreler (H&Ex100) (B).

yer yer yumuşak, yer yer hafifçe sert kıvamda tümöral lezyon izlendi. Mikroskopik incelemede testis dokusunu tama yakın ortadan kaldıran, diffüz infiltrasyon gösteren, iri, hiperkromatik, pleomorfik nükleuslu, bazılarının nükleolleri belirgin, eozinofilik sitoplazmalı atipik lenfoid hücrelerin oluşturduğu tümör izlendi (Resim 6). Spermatik kord cerrahi sınırında tümör saptanmadı. Yapılan immünohistokimyasal incelemede tümöral hücrelerde CD45 ve CD20 ile diffüz ve kuvvetli pozitif, PLAP, CD3, CD30 ve AFP ile negatif boyanma mevcuttu. Ki 67 proliferatif aktivi-

te indeksi yüksek (%80 üzerinde) bulundu. Olguya histopatolojik ve immünohistokimyasal bulgular eşliğinde diffüz büyük B hücreli non-Hodgkin lenfoma tanısı konuldu. Hastanın başka bölgelerinde lenfomayı düşündürecek bulgu saptanmaması nedeni ile primer olarak kabul edildi. Batın bilgisayarlı tomografide (BT) ve pelvik ve paraaortik metastatik lenf nodları ile uyumlu konglomere lenf nodları izlendi. Pozitron emisyon tomografisinde (PET) heriki diafragmatik bölgede ve akciğer parankiminde metastaz ile uyumlu ile tutulum saptandı. Evre III olarak kabul edilen hastaya 4 kür CHOP (siklofosamid, doksorubisin, vinkristin, prednizolon) tedavisi aldı. Tedavi sonrası abdominal ve toraks BT'de metastatik lenf nodlarının ve akciğerdeki parankimal lezyonların tamamen kaybolduğu gözlemlendi. Hastaya kemoterapi sonrası pelvik ve paraaortik radyoterapi uygulandı. Bir yıllık takip süresince olguda rekürrens ve metastaz görülmedi.

Tartışma

PTL agresif seyirli ektranodal lenfomalar olup, genellikle yaşlı bireylerde görülmesine rağmen, son zamanlarda gençlerde de görülme sıklığında artış görülmektedir. Bu artışın HIV enfeksiyonunun prevalansının artışı ile ilişkili olabileceğine inanılmaktadır. Diğer potansiyel neden olarak ise PTL'in immünofenotipik karakterizasyon gösteren tümörler olarak iyi bilinmesinin ve germ hücreli tümörler olarak yanlış tanı alma olasılığının azlığının bu artışa neden olabileceği ile sürülmüştür [1]. Wilson ve ark [4]. yaptıkları bir çalışmada klinik olarak AIDS nedeni ile 2 yıl süre ile takip edilen toplam 3015 erkek hastanın 6'sında testis tümörü mevcuttu. HIV pozitifli olan testis tümörlü 5 hastanın 2'sinde yalnızca HIV pozitifliği, 3'ünde ise AIDS ile ilişkili kompleks vardı. Testis tümörlerinin 4'ü mikst germ hücreli tümör, 1'i pür seminom, diğeri ise Burkitt lenfoma olarak rapor edilmişti. Yapılan klinik evrelemede 3 hasta erken evre (Evre I veya IIA), diğer iki hastadan mikst germ hücreli tümör Evre IIC, Burkitt lenfoma ise Evre IV olarak gözlenmiştir. AIDS kompleksi olan hastalar tümör tanısından ortalama 7 ay sonra ölmüştür. Erken evre olanlar ise 1-9 ay içinde nüks gözlenmiştir. Sonuç olarak HIV pozitif hastaların, HIV negatif olan testis tümörlü diğer hastalara göre daha ileri evrede ve tümörün daha erken progresyon gösterebileceği ileri sürülmüştür. AIDS'li hastalarda oportunistik malignansilerin yaklaşık %95'ini kaposi sarkomu ve non-Hodgkin lenfomalar oluşturmaktadır. Bu lenfomalarında çoğu B hücreli olup, immünoblastik veya Burkitt benzeri karakterindedir. Bu tümörler çoğunlukla santral sinir sistemi (MSS) gibi ektranodal bölgelerde yerleşim göstermektedir. Ayrıca diğer malignitelerden, Hodgkin hastalığı, anorektal karsinomlar ve testiküler tümörlerin artışında da rol oynadığı düşünülmektedir [5]. PTL hastalarda prognozu belirleyen en önemli faktörler evre ve histolojik gradedir. Intermediate grade DBBL, testiste özellikle yüksek gradeli Burkitt lenfomanın sekonder infiltrasyonundan sonra en sık görülen histolojik paterndir. Prognozu olumsuz yönde etkileyen faktörler ise; yaşa bağlı yetersiz organ fonksiyonları, konstitüsyonel belirtilerin varlığı, primer tümörün çapının 9 cm'den büyük olması, epididim ve spermatik kord tutulumu, bilateral testis tutulumu ve LDH seviyesinin yüksek olmasıdır [6]. PTL'da klinik olarak ateş, kilo kaybı, iştahsızlık, gece terlemesi ve halsizlik gibi semptomlar görülebilir. Fizik muayenede ise sıklıkla testisten tam olarak ayırt edilemeyen sert ağrısız kitle gözlenir. Skrotal USG'de, homojen hiperekoik normal testis dokusu içinde

hipoekoik sınırları lobüle kitlesel lezyon görülmesi tanıda oldukça yardımcıdır. Testisin germ hücreli tümörleri dışında granülo-matöz orşit, psödolenfoma, plazmositom ve rabdomyosarkom testiküler lenfomayı taklit edebilir [7]. Serumda ise germ hücreli tümörlerde gözlenen tümör markırlarında (AFP, β -hCG) artış olmaz. Serumda LDH seviyesinde ise artış izlenebilir. Testisinde hipoekoik kitlesel lezyon saptanan hastanın hem yaşlı olması hemde tümör markırlarının normal seviyede olması PTL'sini düşündürmesi açısından en önemli faktörlerdir. Bizim her iki olgumuzda da LDH seviyesinde yükseklik mevcut olup, diğer tümör markırları normal seviyede idi.

PTL ayırıcı tanısında klasik seminoma, spermatositik seminoma ve embriyonel karsinoma yer almaktadır [8]. Histopatolojik incelemede, testis lenfomaları diffüz infiltrasyon yapması nedeni ile testisin en sık görülen tümörlerinden seminomdan ayırt edilmesi gereklidir. Seminom hücreleri, lenfoma hücrelerinin aksine hücre membranları belirgindir ve santralde yerleşmiş oval-yuvarlak nükleus etrafında geniş glikojenden zengin sitoplazması vardır. Ayırıcı tanıda immünohistokimyasal inceleme yardımcı olmaktadır. Lenfomada CD45'in pozitif olması ve PLAP negatifliği seminomdan ayırımında en önemli immünohistokimyasal belirteçlerdir. Lenfomanın hücresel tipinin belirlenmesi için ise CD20 ve CD3 yapılmalıdır. Proliferasyon indeksini saptamak için Ki-67 bakılmalıdır. Bizim olgularımızda CD45 ve CD20 ile diffüz kuvvetli pozitif boyanma saptanırken, PLAP ile boyanma gözlenmemiştir. Ki-67 proliferasyon indeksi ise her iki olguda da %80 üzerinde saptanmıştır. Testisin diğer bir germ hücreli tümörü embriyonel karsinomda ise epitelioid görünüm olması ve çoğunlukla glandüler, papiller ve tübüler yapılar yapması nedeni ile kolaylıkla lenfomadan ayırt edilebilir. Hem seminomda hemde embriyonel karsinomda gözlenen prekürsör lezyon olan intratübüler germ hücreli neoplaziler, lenfomalarda yoktur. Granülo-matöz ve viral orşitlerde bazen histolojik olarak lenfomayı taklit edebilirler [9].

PTL tedavisinde çeşitli tedavi modaliteleri olup, henüz standart bir tedavi yaklaşımı mevcut değildir. Erken evrelerde (Evre I ve II), orşiektomi sonrası doksorubisinli kemoterapi ve profilaktik skrotal radyoterapi veya paraaortik lenf nodu radyoterapi uygulanması önerilmektedir. Retroperitoneal bölgeye uygulanan adjuvan radyoterapiye rağmen Evre IE ve IIE'de %70 varan sıklıkla nüks görülmektedir. Nüksler genellikle takibin ilk iki yılında olmaktadır. İleri evre (Evre III ve IV) hastalıkta ise kombine kemoterapi tercih edilen tedavi yaklaşımıdır [2]. Zietman ve ark. [10] 21 Evre IE olguda 10'una doksorubisinli kemoterapi uygulamış, diğer 11 hastanın 6'sını orşiektomi, 5'ini ise radyoterapi ile tedavi etmişlerdir. Çalışma sonucunda 5.yılında hastaliksız sağ kalım kemoterapi alan grupta %75, diğer grupta ise %50 olarak bulunmuştur. Liang ve ark.[11] kombine kemoterapi ve paraaortik lenf nodu radyoterapisi uyguladıkları erken evre (IE ve IIE) 12 hastanın ortalama yaşam süresinin 40 ay olarak bildirmişlerdir. Tüm evreler dikkate alındığında 5 yıllık sağ kalım oranı %12 'dir [2]. Testisteki DBBHL olgularında MSS tutulum olabilmektedir. Fonseca ve ark.[12] bildirdiği seride olguların %32'sinde MSS'de nüksün saptanmış olması MSS yönelik profilaksinin gerektiğini düşündürmektedir. Ancak intratekal kemoterapinin santral sinir sisteminin profilaksisindeki rolü hala tartışmalıdır. Yapılan çalışmalarda tedavi alan ve almayan olguların karşılaştırılmasında aynı oranda nüks tespit edilmiştir. Profilaktik kra-

nial radyoterapinin etkinliğini ortaya koyacak randomize çalışmalar henüz yapılmamıştır.

Sonuç olarak, ileri yaşta testiste görülen ağrısız kitlelerde lenfoma ilk planda düşünülmesi gerekmektedir. PTL tanısı için, skrotal USG ve serumda LDH seviyesinin yüksekliği önemli olup, ancak kesin tanı orşiektomi sonrası yapılan histopatolojik ve immünohistokimyasal bulgular ile birlikte konulduğu bilinmelidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Vidyavathi K, Prabhakar K, Harendra KM. Primary testicular lymphoma with rupture: An unusual presentation. J Nat Sci Biol Med. 2013;4(1):232-235.
2. Ergün O, Koşar A, Baş E, Bircan S, Alanoğlu EG. Primer testis lenfoması: Bir olgu sunumu ve rituximab ile kombine kemoterapinin etkinliği. Türkiye Klinikleri J Med Sci 2011;31(3):748-751.
3. Ferry JA, Harris NL, Young RH, Coen J, Zietman A, Scully RE. Malignant lymphoma of the testis, epididymis, and spermatic cord. A clinicopathologic study of 69 cases with immunophenotypic analysis. Am J Surg Pathol. 1994;18(4):376-90.
4. Wilson WT, Frenkel E, Vuitch F, Sagalowsky AI. Testicular tumors in men with human immunodeficiency virus. J Urol. 1992;147(4):1038-1040.
5. Mueller N, Hatzakis A. Opportunistic malignancies and the acquired immunodeficiency syndrome. Princess Takamatsu Symp. 1987;18:159-171.
6. Shahab N, Doll DC. Testicular lymphoma. Semin Oncol. 1999;26(3):259-269.
7. Zicherman JM, Weissman D, Gribbin C, Epstein R. Best cases from the AFIP: primary diffuse large B-cell lymphoma of the epididymis and testis. Radiographics. 2005;25(1):243-248.
8. Horne MJ, Adeniran AJ. Primary diffuse large B-cell lymphoma of the testis. Arch Pathol Lab Med. 2011;135(10):1363-1367.
9. Kim HS. Primary testicular diffuse large B-cell lymphoma: A case report focusing on touch imprint cytology and a non-germinal center B-cell-like phenotype. Exp Ther Med. 2013;6(1):33-36.
10. Zietman AL, Coen JJ, Ferry JA, Scully RE, Kaufman DS, McGovern FG. The management and outcome of stage IAE nonHodgkin's lymphoma of the testis. J Urol. 1996;155(3):943-946.
11. Liang R, Chiu E, Loke SL. An analysis of 12 cases of non-Hodgkin's lymphomas involving the testis. Ann Oncol. 1990;1(5):383.
12. Fonseca R, Habermann TM, Colgan JP, O'Neill BP, White WL, Witzig TE, et al. Testicular lymphoma is associated with a high incidence of extranodal recurrence. Cancer. 2000;88(1):154-161.

How to cite this article:

Bedir R, Şehitoğlu İ, Mürtezoğlu AR, Yaytokgil M, Uzun H. Primary Testicular Lymphoma: Two of Case Reports. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 138-41.



Cartilage Calcification Mimics Polychondritis in Bone Scintigraphy

Kemik Sintigrafisinde Polikondrit Benzeri Bulgu Veren Kartilaj Kalsifikasyonu

Polikondrit Benzeri Bulgu Veren Kartilaj Kalsifikasyonu / Calcification Mimics Polychondritis

Hasan İkbāl Atılğan¹, Murat Sadıç¹, Meliha Korkmaz¹, Sezgin Karasu², Arif Osman Tokat²

¹Department of Nuclear Medicine, ²Department of Chest Surgery,
Ministry of Health Ankara Training and Research Hospital, Ankara, Turkey

This case was presented as a poster presentation at 25. National Nuclear Medicine Congress, organized by Turkish Society of Nuclear Medicine in 6 - 10 April 2013.

Özet

58 yaşında erkek hasta 2.5 aydır var olan göğüs orta kesimde, sternal ağrı şikayetiyle Nükleer Tıp Kliniğimize refere edildi. Çekilen üç fazlı kemik sintigrafisinde, patolojik perfüzyon artışı veya hiperemi alanı saptanmaksızın, geç görüntülerde: bilateral 1. sternokostal bileşke kesiminde belirgin artmış aktivite tutulumu, ayrıca 3, 4 ve 5. sternokostal bileşke kesiminde ve korpus sterni alt kesim her iki lateral alanında artmış aktivite tutulumları gözlenmekteydi. Çekilen 3 boyutlu toraks duvarı kemik yapıların BT incelemesinde, bilateral birinci kosta, sternokostal eklemler düzeyinde ve sternumda xiphoid süreci sağ kesiminde yumuşak dokuya ait dansiteler ve litik görünüm izlendiği rapor edildi. Kemik sintigrafisi ve CT'de izlenen sternokostal lezyonlar biyopside normal kıkırdak ve yumuşak dokular olarak rapor edildi.

Anahtar Kelimeler

Kemik Sintigrafisi; Polikondrit; Bilgisayarlı Tomografi

Abstract

58 year-old male patient with sternal pain was referred to our Nuclear Medicine Clinic for bone scintigraphy for 2.5 months. Markedly increased activity accumulation in the first bilateral sternocostal junction and increased activity accumulations in 3rd, 4th, 5th sternocostal junctions and lateral portion of inferior part of corpus sterni were seen in late static images without increased perfusion and hyperemia. Soft tissue density and lytic lesions were seen bilaterally in bilateral first costa, sternocostal joints and in right side of xiphoid in his 3D computed tomography (CT). Sternocostal lesions that were seen in bone scintigraphy and CT, was reported as normal in biopsy.

Keywords

Bone Scintigraphy; Polychondritis; Computed Tomography

DOI: 10.4328/JCAM.2033

Received: 23.08.2013 Accepted: 08.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 142-4

Corresponding Author: Murat Sadıç, Department of Nuclear Medicine, Ministry of Health, Ankara Training and Research Hospital, 06560 Ankara, Turkey.

T.: +90 3125953608 F.: +90 3125953856 E-Mail: mdmuratsadic@gmail.com

Introduction

Bone scintigraphy is a widely used and valuable imaging modality for the pathologies of bone and joints (1). Bone scintigraphy has high sensitivity, but low specificity. This low specificity may cause confirmation with other imaging modalities or even with biopsy. Herein, we report a case that has activity accumulation in the sternocostal junctions with bone scintigraphy and suspicious metastatic foci with three dimensional (3D) computed tomography (CT), but reported as normal cartilage and soft tissue in pathological examination.

Case Report

58 year-old male patient admitted to thorax surgery clinic with pain around sternum for 2.5 months. Patient was referred to our clinic for three phase bone scintigraphy. In his physical examination, he had tenderness around sternum, but he didn't have swelling or erythema. He didn't have any trauma or surgery history. In his blood analysis, ALP:139 U/L (normal: 30-120 U/L) and calcium: 9.9 mg/dL (normal: 8.8-10.6 mg/dL). For the bone scintigraphy, 20 mCi Technetium-99m hydroxymethylene diphosphonate was injected. The images were taken when the patient was in supine position. A large field of view with a dual head gamma camera (GE Millenium, USA), equipped with a low energy general purpose, parallel hole collimator was used. A blood flow (1 s/frame, 64x64 matrix, 60 images) and blood pool (2 min/image, 128x128 matrix) image were taken from the thoracal region. In the 3rd hour after injection, anterior and posterior whole body and static image from the thoracal region (14cm/min, 256x1024 matrix) were taken. In perfusion and blood pool phases of three phase bone scintigraphy, there was not any pathologically increased perfusion or hyperemia. Markedly increased activity accumulation in first sternocostal junction, increased activity accumulation in 3rd, 4th and 5th sternocostal junctions and lateral portion of inferior part of corpus sterni were seen in late static and whole body images. The lesion was evaluated as benign lesions like polychondritis, because there was not any increased perfusion or hyperemia in perfusion and blood pool phases [Figure 1]. In his 3D CT of thoracal bones, soft tissue density and lytic lesions were seen bilaterally in first sternocostal joints and in right side of xiphoid. Because of lytic lesions in CT, it was thought that the lesions may be associated with a metastatic cancer. To rule out metastasis five pieces of tissue sample were taken and evaluated histopathologically and the samples were reported as normal cartilage and soft tissue [Figure 2].

Discussion

Bone scintigraphy is an imaging modality that has high sensitivity, but limited specificity in the evaluation of bone pathologies [2, 3]. Because of its low specificity, diagnosis can be difficult. Three phase bone scintigraphy is used for the diagnosis of primary bone pathologies and differentiation of malign and benign lesions [4]. Bone scintigraphy can identify abnormal changes in cartilage [5]. Increased radioactivity accumulation is seen in costocartilages and sternoclavicular joints in polychondritis [6]. In this case, after scintigraphic and 3D CT imaging possible metastasis is thought and so histopathological confirmation is needed. Sternocostal lesions that were seen in bone scintigra-



Figure 1. Late whole body (A) and static (B) bone scintigraphy images, markedly increased activity accumulation in first sternocostal junction, increased activity accumulation in 3rd, 4th and 5th sternocostal junctions and lateral portion of inferior part of corpus sterni is seen.

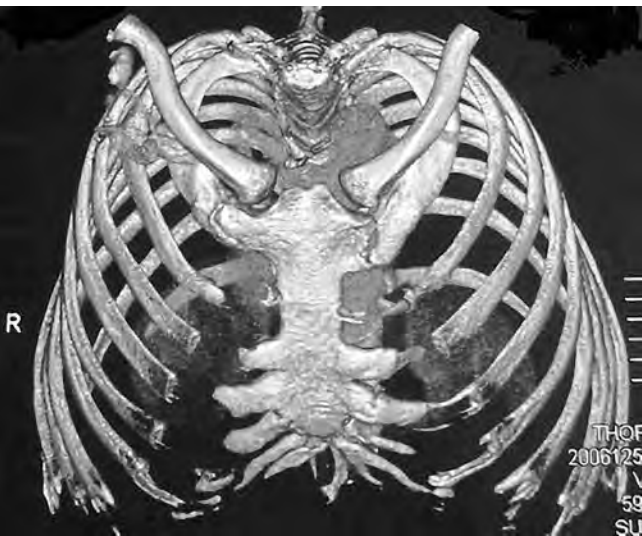


Figure 2. 3D CT of thoracal bones, soft tissue density and lytic lesions were seen bilaterally in 1st sternocostal joints and in right side of xiphoid.

phy and 3D CT, were reported as normal cartilage in biopsy. The lesions which were misinterpreted as polychondritis were infact false positive due to cartilage calcifications.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Palestro CJ. Radionuclide imaging after skeletal interventional procedures. *Semin Nucl Med.* 1995 Jan;25(1):3-14.
2. Puig S, Staudenherz A, Steiner B, Eisenhuber E, Leitha T. Differential diagnosis of atypically located single or double hot spots in whole bone scanning. *J Nucl Med* 1998;39(7):1263-6.
3. Kacar G, Kacar C, Gungor F. The Agreement Between Blood Pool – Delayed Bone Scintigraphy and Tc-99m Human Immunoglobulin G (HIG) Scintigraphy in the Determination of the Presence and Severity of Inflammatory Arthritis. *Mol Imaging Radionucl Ther* 2011;20(2):45-51.
4. Schirrmester H, Guhlmann A, Elsner K, Kotzerke J, Glatting G, Rentschler M, et al. Sensitivity in detecting osseous lesions depends on anatomic localization: planar bone scintigraphy versus 18F PET. *J Nucl Med* 1999;40(10):1623-9.
5. Shi XH, Zhang FC, Chen LB, Ouyang M. The value of 99mTc methylene diphosphonate bone scintigraphy in diagnosing relapsing polychondritis. *Chin Med J (Engl)* 2006;119(13):1129-32.
6. Imanishi Y, Mitogawa Y, Takizawa M, Konno S, Samuta H, Ohsawa A, et al. Relapsing polychondritis diagnosed by Tc-99m MDP bone scintigraphy. *Clin Nucl Med* 1999;24(7):511-3.

How to cite this article:

Atilgan HI, Sadic M, Korkmaz M, Karasu S, Tokat AO. Cartilage Calcification Mimics Polychondritis in Bone Scintigraphy. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 142-4.



A Rare Cause of Acute Urinary Retention: Retroperitoneal Ganglioneuroma and Concurrent Mediastineal Schwannoma

Akut Üriner Retansiyonun Nadir Bir Nedeni: Retroperitoneal Ganglionöroma ve Eş Zamanlı Görülen Mediastinal Schwannoma

Üriner Retansiyon Nedeni: Ganglionöroma / Cause of Urinary Retention: Ganglioneuroma

Salih Budak, Muzaffer Yılmaz, Hüseyin Aydemir, Osman Köse, Fatma Hüsniye Dilek, Öztuğ Adsan
Sakarya Üniversitesi Eğitim Araştırma Hastanesi, Üroloji Anabilim Dalı, Sakarya, Türkiye

Özet

Akut idrar retansiyonu ile başvuran yaşlı erkek hastalarda, altta yatan öncelikli neden sıklıkla benign prostat hipertrofisi ve üretral patolojilerdir. Akut idrar retansiyonu obstrüksiyonun yanı sıra nörojenik nedenlerle gelişebilmektedir. Nörojenik tümörler, nöral "crestten" köken alan hücrelerden gelişirler ve sinir dokusunun bulunduğu her yerde görülebilirler. Bu yazıda akut üriner retansiyona neden olan nadir görülen retroperitoneal ganglionöroma ve eş zamanlı asemptomatik mediastinal schwannoma olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Akut İdrar Retansiyonu; Ganglionöroma; Retroperiton; Schwannoma

Abstract

The underlying prior cause at the old male patients referred with acute urinary retention is frequently benign prostatic hypertrophy and urethral pathologies. Acute urinary retention can develop with obstruction as well as neurogenic causes. Neurogenic tumors develop from the cells which take their origin from the neural crest and they can be seen every neural tissue. In this study rarely seen retroperitoneal ganglioneuroma which causes acute urinary retention and coexisting asymptomatic mediastineal schwannoma case is presented.

Keywords

Acute Urinary Retention; Ganglioneuroma; Retroperitoneum; Schwannoma

DOI: 10.4328/JCAM.2080

Received: 05.10.2013 Accepted: 20.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 145-7

Corresponding Author: Salih Budak, Baytur Sitesi Manolya 3 d:16 Korucuk Adapazarı, Sakarya, Türkiye.

T.: +905052639870 E-Mail: salihbudak1977@gmail.com

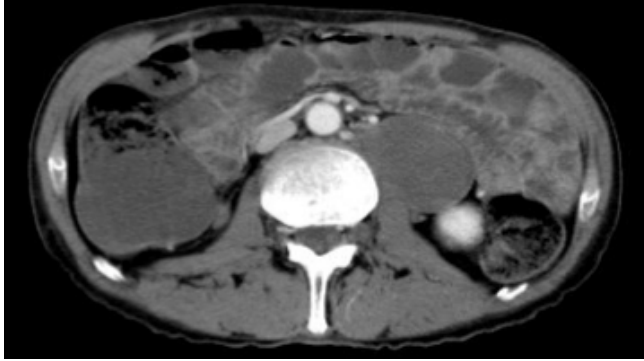
Giriş

Nörojenik tümörler, nöral “crestten” köken alan hücrelerden gelişirler ve sinir dokusunun bulunduğu her yerde görülebilirler. Nörolojik tümörler köken aldıkları hücreye göre; sinir kılıfı, sempatik ganglionlar, paraganglial hücreler ve nöroektodermden kaynaklanan tümörler olarak sınıflandırılırlar. Nörolojik tümörler çoğunlukla semptom vermezler ve genellikle rutin radyolojik tetkikler sırasında fark edilirler. Ganglionöroma, matür sempatik ganglion hücreleri ve sinir fibrillerinden gelişen nadir görülen benign bir nörojenik tümördür [1]. Schwannomalar, sinir kılıfındaki perinöral hücrelerin proliferasyonundan kaynaklanırlar ve en sık rastlanılan nörojenik tümörlerdir [2].

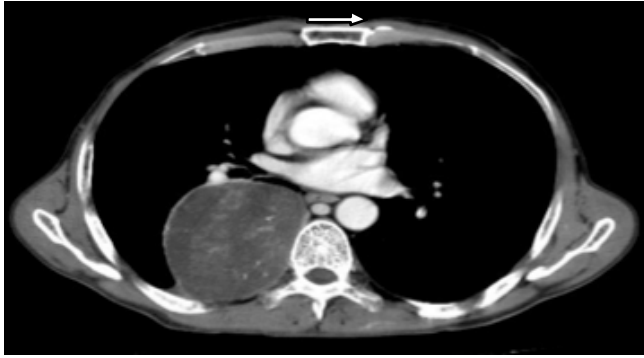
Bu yazıda akut üriner retansiyon ile prezente olan retroperitoneal ganglionöroma ve eş zamanlı görülen asemptomatik Mediastinal schwannoma olgusu sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Daha önce miksiyonla ilgili herhangi bir yakınması olmayan ve akut üriner retansiyon nedeniyle başvuran 55 yaşındaki erkek hastanın yapılan değerlendirilmesinde, abdominal ultrasonografide retroperitoneal alanda ve PA akciğer grafisinde medias-tende kitle tespit edildi. Takiben bilgisayarlı tomografi ile yapılan tüm batın ve toraks görüntülemesinde sol retroperitoneal alanda ve mediastende dev kitle (73*95mm) varlığı saptandı (resim 1,2). Hastanın ilk muayenesinde suprapubik kitleye eşlik eden



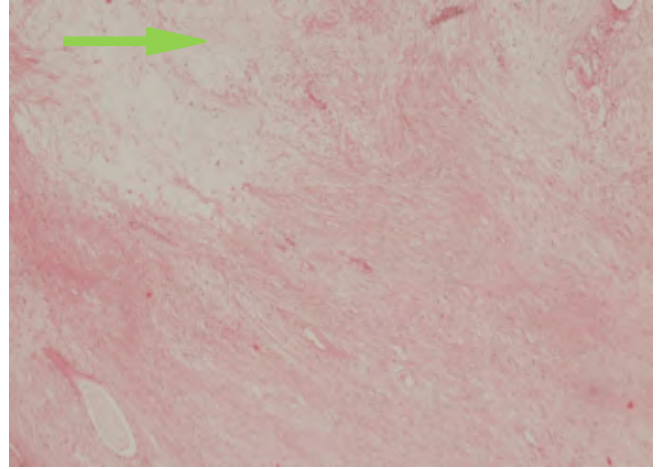
Resim 1. Beyaz ok Retroperitoneal Ganglionöroma



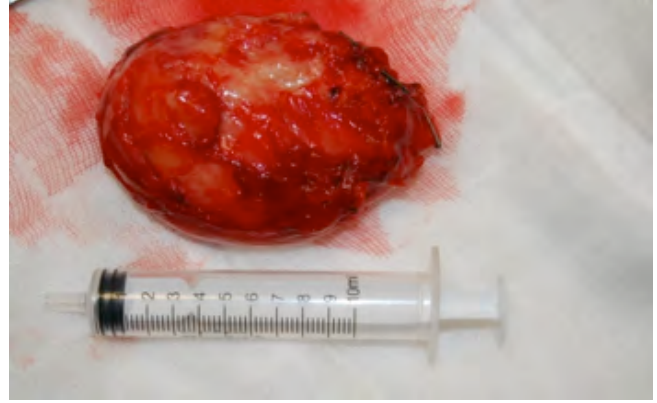
Resim 2. Yeşil ok Mediastinal Dev schwannoma

hassasiyet ve ağrı mevcuttu (glob vezikale) üretral kateterizasyonu takiben yapılan fizik muayene bulguları normaldi, nöroendokrin tümörlere eşlik edebilen herhangi bir cilt lezyonu (sütlü kahve lekesi, nörofibroma, aksiller veya inguinal çillenme) saptanmadı. Hastanın özgeçmişinde ve aile öyküsünde özellik arz eden herhangi bir bulgu bulunmamaktaydı. Preoperatif endokrin ve biyokimyasal değerlendirmeler normal sınırlarda tespit edildi

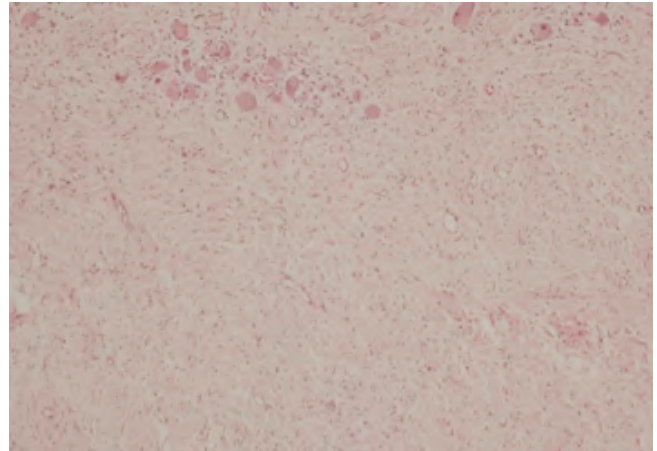
(PSA:1,7). Mevcut bulguları ile multidisipliner olarak değerlendirilen hastaya öncelikli olarak sağ torakotomi ile mediastinal kitle eksizyonu yapıldı, hastanın patoloji sonucu schwannoma olarak rapor edildi(resim 3). Hastaya bir sonraki seansta retroperitoneal kitleye yönelik açık cerrahi uygulandı. Retroperitonda 32*46 mm boyutlarında, düzgün kenarlı ve vasküler yapılar ile ilişkili kitle, künt ve keskin diseksiyonlar ile total olarak eksize edildi (resim 4). Kitlenin eksizyon sonrası histopatolojik incelemesi, ganglionöroma ile uyumlu olarak rapor edildi (resim 5). Birinci yıl kontrollerinde nüks tespit edilmedi.



Resim 3. schwannoma Antoni B alanları



Resim 4. Retroperitoneal ganglionöroma



Resim 5. Schwan benzeri hücreler ile çevrili küme gösteren olgun ganglion hücreleri (Ganglionöroma)

Tartışma

Akut idrar retansiyonu ile başvuran yaşlı erkek hastalarda, alta yatan öncelikli neden sıklıkla benign prostat hipertrofisi ve

üretal patolojiler (striktür, taş, v.b.) olmaktadır [3]. Ancak üriner traktın mekanik nedenlere bağlı obstrüksiyonun yanı sıra nörojenik nedenler ile fonksiyon kaybına uğraması göz ardı edilmemelidir. Santral sinir sistemini etkileyen tümörler, multipl skleroz gibi inflamatuvar hastalıklar ya da diyabette olduğu gibi periferik sinir tutulumu olan hastalarda üriner sistemde fonksiyonel kayıplar meydana gelebilmektedir. Otonom sinir sisteminin önemli bir lokalizasyonu olan retroperitonda meydana gelen patolojilerde üriner sistemi etkileyebilmektedir. Bizim olgumuzda miksiyon gücünün dışında semptomla yol açmayan retroperitoneal kaynaklı ganglionöroma mevcuttur.

Ganglionöromalar en sık yerleşim yerleri sırasıyla mediasten ve retroperitondur [1,4]. Retroperitoneal ganglionöromalar çoğunlukla asemptomatik ve hormonal olarak inaktiftir. Ancak büyük boyutlara geldiklerinde palpabl abdominal kitle, ağrı gibi non spesifik semptomlara neden olurlar. Retroperitoneal yerleşimli tümörler çoğunlukla (% 80) malign olmalarına rağmen ganglionöromalar benign karakterlidir ve retroperitoneal tümörlerin %1'ni oluşturmaktadır [5,6].

Schwannomalar erişkin yaş grubunda en sık görülen mediastinal nörojenik tümörlerdir [7]. Diğer nörojenik tümörlerde olduğu gibi benign schwannomalar uzun bir dönemde ve yavaş büyümektedirler. Schwannomalar sıklıkla 3 ve 5. dekadlar arasında görülürler, genelde asemptomatikler ve çoğunlukla benign karakterlidir [8]. Özellikle nörofibromatozis ile birlikte görülen schwannomaların malign olabileceği akılda tutulmalı, sistemik muayene ve takip unutulmamalıdır [8].

Hem schwannoma hem de ganglionöromanın tedavisi kitlenin tam cerrahi eksizyonudur [9,10]. Retroperitoneal ganglionöromaların cerrahi eksizyonu hayati anatomik yapılar ile olan yakın komşulukları nedeniyle zor olabilmektedir [11]. Operasyon sonrası adjuvan tedavi gerekmemekle birlikte malign olma ihtimalinde düşünülerek düzenli takipler yapılmalıdır. Hastamızın bir yıllık takiplerinde nüks görülmemiştir.

Sonuç

En sık akut idrar retansiyonu nedeni üriner sisteme ait patolojiler olmasına rağmen, olası diğer nedenlerde akılda tutulmalıdır. Akut üriner retansiyon hastalarına sistemik değerlendirme yapmak doğru olacaktır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Moriwaki Y, Miyake M, Yamamoto T, Tsuchida T, Takahashi S, Hada T et al. Retroperitoneal ganglioneuroma. A case report and review of the Japanese literature. Intern Med 1992; 31: 82-5.
2. Weiss SW, Goldblum JR. Benign tumors of peripheral nerves. In: Weiss SW, Goldblum JR, editors. Enzinger and Weiss's soft tissue tumors. 4th edition. St. Louis, Missouri: Mosby; 2001. p.1111-1207.
3. Fitzpatrick JM, Kirby RS. Management of acute urinary retention. BJU Int 2006;97:16-20.
4. Zare S, Parvin M, Ghohestani SM. Retroperitoneal ganglioneuroma. Urol J 2008;5:232
5. Pinson CW, ReMine SG, Fletcher WS, Braasch JW. Long-term results with primary retroperitoneal tumors. Arch Surg. 1989;124(10):1168-73
6. Georger B, Hero B, Harms D, Grebe J, Scheidhauer K, Berthold F. Metabolic activity and clinical features of primary ganglioneuromas. Cancer. 2001 May 15;91(10):1905-13.
7. Davis RD, Oldham HN, Sabiston DC. Primary cysts and neoplasms of the medi-

astinum: recent changes in clinical presentation, methods of diagnosis, management, and results. Ann Thorac Surg 1987; 44:229-37

8. Reynolds M, Shields TW. Benign and Malignant Neurogenic Tumours of Mediastinum in Children and Adults. In Shields TW, Locicero J, Reed CE, Feins RH ed. General Thoracic Surgery, vol 2, 7th ed. Philadelphia: Lippincott Williams Wilkins; 2009;2415-39.

9. Hayes FA, Green AA, Rao BN. Clinical manifestations of ganglioneuroma. Cancer 1989;63:1211-4.

10. Macchiarini P, Ostertag H. Uncommon primary mediastinal tumours. Lancet Oncol 2004;5:107-18.

11. Vasiliadis K, Papavasiliou C, Fachiridis D, Pervana S, Michaelides M, Kiranou M, et al. Retroperitoneal extradrenal ganglioneuroma involving the infrahepatic inferior vena cava, celiac axis and superior mesenteric artery. A case report. International Journal of Surgery Case Reports 2010; 3:541-43.

How to cite this article:

Budak S, Yılmaz M, Aydemir H, Köse O, Dilek FH, Adsan Ö. A Rare Cause of Acute Urinary Retention: Retroperitoneal Ganglioneuroma and Concurrent Mediastineal Schwannoma. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 145-7.



A Case of Bezold's Abscess with an Unusual Extension to the Upper Thorax

Üst Toraks da Alışılmadık Bezold Apse Olgusu

Bezold Apsesi / Bezold's Abscess

Reza Javad Rashid¹, Masood Naderpour², Afshin Habibzadeh³, Javad Jalili¹, Maryam Mozayyan¹

¹Dep. Radiology and Radiotherapy, Imam Reza Hospital, ²Dep. Otolaryngology, Imam Reza Hospital, ³Cardiovascular Research Center, Tabriz University of Medical Sciences, Tabriz, Iran

Özet

Bezold absesi derin servikal alanlarda otomastoiditis bir apse komplikasyonudur. Antibiyotikler, antibiyotik öncesi çağa göre otitis media ait komplikasyonların sıklığında genel bir düşüş yapmışlardır. Burada üst toraks sıradışı uzantısı ile Bezold adlı apsesi olan 23 yaşındaki erkek sunuldu.

Anahtar Kelimeler

Bezold Absesi; Kolesteatom; İşitsel Atrezi

Abstract

The Bezold's abscess is an abscess in deep cervical spaces that is considered as a complication of otomastoiditis. Antibiotics have produced an overall decline in the frequency of complications of otitis media relative to the pre-antibiotic era. Here we report a 23 year old male with Bezold's abscess with unusual extension to upper thorax.

Keywords

Bezold's Abscess; Cholesteatoma; Aural Atresia

DOI: 10.4328/JCAM.2067

Received: 24.09.2013 Accepted: 20.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 148-50

Corresponding Author: Javad Jalili, Department of Radiology and Radiotherapy, Tabriz University (Medical Sciences), Golbad Ave., Tabriz, Iran; Zip code: 5166615556; T.: +98 411 3377649 F.: +98 411 3345591 E-Mail: jaradiolog87@yahoo.com

Introduction

The Bezold's abscess was first described in 1881 by Dr Friedrich Bezold, a German otologist, by a study in cadavers in which purulent secretion was observed draining from the medial surface of the mastoid process[1].

Bezold's abscess is different from the other more common forms of abscesses, such as the subperiosteal [1] and should be considered in the differential diagnosis of neck abscesses as well as unexplained intracranial/extracranial or upper thoracic abscesses [2]. Bezold's abscess is caused by a suppurative process eroding the mastoid cortex along the digastric ridge and spreading between the digastric and sternocleidomastoid muscles [1,3]. Since the advent of antibiotics, Bezold's abscesses have become less and less common [1].

Congenital aural atresia is a term used to refer to a spectrum of ear deformities present at birth that involve some degrees of the development of the external auditory canal (EAC). Usually there is a deformed or missing pinna and no external auditory canal. The mastoid and the middle ear space may be underdeveloped and the ossicular chain is dysplastic [4]. This paper presents a case of Bezold's abscess associated with aural atresia, with the unusual extension to the upper thorax.

Case Report

A 23-year-old male patient, with a history of smoking and opiate abuse presented with headache, fever, malaise and pain in the right arm for 10 days before visiting in our emergency room. He was previously admitted to another center with these complaints, where he received broad spectrum IV antibiotic therapy and his status was relatively improved. No other significant history such as otalgia or ear discharge was obtained. In physical examination, the patient was febrile and had swelling and erythema in neck more prominent on right side with extension to upper anterior aspect of thorax and right arm. Bilateral aural atresia was also present.

High resolution computed tomography (HRCT) scan of the temporal bone revealed limited pneumatization of bilateral mastoid cells, otitis, mastoiditis and also cholesteatoma of right ear with bony destruction and invasion to adjacent soft tissues (Fig. 1A). External auditory canals were bilaterally atretic (Fig. 1B and 1C). Ossicles of right middle ear were not seen (Fig. 1D). Extensive abscess in posterior neck spaces (Fig. 1 E) with extension to chest wall on right side (Fig. 1F) were observed on neck CT scans. Brain CT showed pneumocephalus in right side of posterior fossa (Fig. 1G).

The patient was admitted and undergone tympanomastoidectomy. After the procedure, IV treatment with broad spectrum antibiotics was initiated. After one week the patient showed considerable improvement. Chest wall abscess does not respond to antibiotic therapy and treated with percutaneous drainage. The patient is discharged with oral antibiotics.

The patient was followed for 6 months. During follow-up period no complications was observed. Audiometry was performed for the patients before surgery and during follow-up that showed 50 dbL conductive hearing loss as a complication of the cholesteatoma which was not improved after surgery.

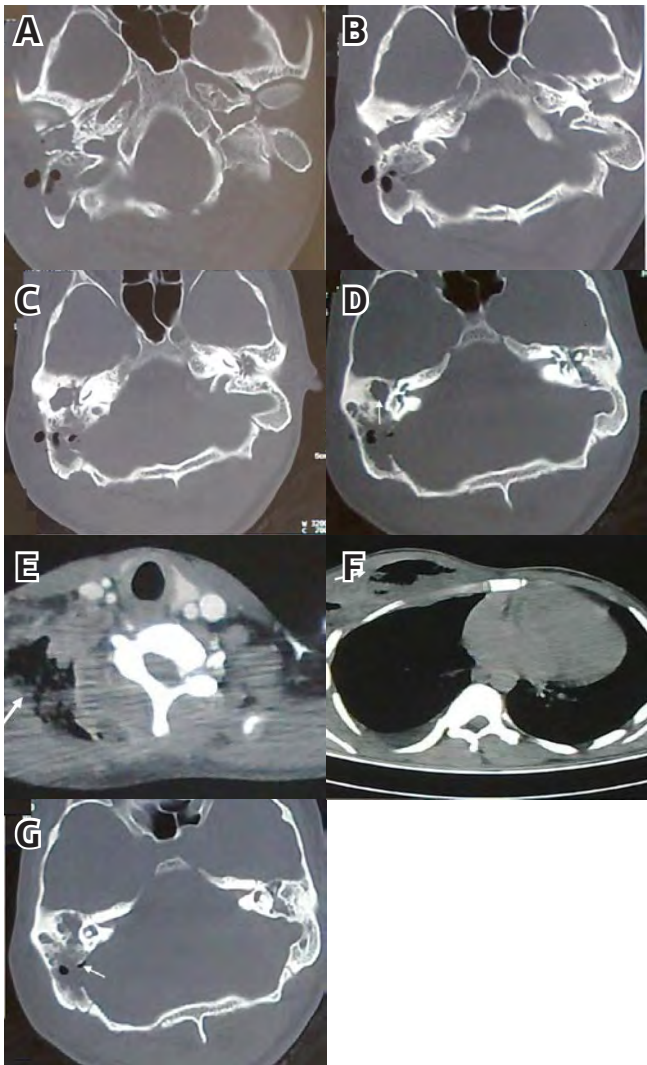


Fig 1. A 23-year-old male patient with Bezold's abscess and aural atresia with an unusual extension to the upper thorax.

A. High resolution computed tomography (HRCT) of the temporal bone revealed limited pneumatization of bilateral mastoid cells, otitis, mastoiditis and also cholesteatoma of right ear with bony destruction and invasion to adjacent soft tissues. B and C. HRCT scan revealed bilateral atresia of external auditory canals (arrows). D. In HRCT scan ossicles of right middle ear were not seen (arrow). E. Neck CT scan revealed extensive abscess in posterior neck spaces (arrow). F. Neck CT scan showed abscess extension to chest wall on right side (arrow). G. Pneumocephalus was observed in right side of posterior fossa in brain CT scan (arrow).

Discussion

Cholesteatomas are benign masses but have potential to destroy local structures that affects various pneumatized spaces such as middle ear, mastoid or petrous bone. A patient with cholesteatoma has a higher risk of complications than with other types of otitis media because of its invasiveness [5]. Bezold's abscess is reported previously as a complication of cholesteatoma [2,6].

A Bezold's abscess is a cervical abscess that develops in the presence of coalescent mastoiditis. Although Bezold's abscess is more commonly a complication of acute otitis media with mastoiditis, it is a known complication of chronic otitis media with cholesteatoma [6]. The pathogenesis of the Bezold's abscess has been attributed to the degree of pneumatization of the mastoid bone. The aeration of the mastoid bone, causing its walls to thin out can easily act as a pathway for a disease process to spread through it. In the absence of extensive pneumatization, mastoid bone walls are thick and difficult to erode [5,7]. The presence of cholesteatoma debris in the chronically infect-

ed mastoid may obstruct the infectious foci into external auditory canal and allows the foci to find a weak point in mastoid tip [2]. In our patient atresia of external auditory canal could be an additional reason.

The main imaging modality for diagnosis of Bezold's abscess is CT scan of temporal bone and neck, especially in clinically unnoticed abscesses [1,3]. The findings include the presence of fluid filled middle ear and mastoid and demineralization of the mastoid trabeculae [8]. CT scan of neck could show the collection together with obliteration of the fascia and fat plane, reticulation of the subcutaneous tissues and thickening of the skin overlying sternocleidomastoid muscle [3]. Any suspicion of intracranial extension or complications warrants an immediate CT scan. Castillo et al. [3] also suggested brain imaging to detect other intracranial complications of mastoiditis.

HRCT scan of the temporal bone in our patient showed fluid in mastoid with bony destruction and invasion to adjacent soft tissues. In the neck CT scans extensive abscess in posterior neck spaces with extension to chest wall on right side were observed. Brain CT also showed pneumocephalus in right side of posterior fossa.

The aural atresia was a significant finding that is not reported in cases with Bezold's abscess and cholesteatoma. Although aural atresia was previously reported in cases with congenital cholesteatoma or children with cholesteatoma [9], it is only reported in one adult patient (a 30-year-old man) with an inflammatory granulation tissue and chronic osteomyelitis in the posterior part of the mastoid in CT scan [10].

In our patient, aural atresia and cholesteatoma was two risk factors that we could consider as leading causes for developing of a Bezold's abscess. Of course a delay in taking adequate antibiotics and subsequently being prone to extensive infectious processes should not be overlooked.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Gaffney R. Bezold's abscess. *J Laryngol Otol.* 1991;105:765–6.
2. Lazim N, Abdullah A. An extensive cholesteatoma with bezold's abscess. *Int J Clin Med.* 2011;2:292-294.
3. Castillo M, Albernaz VS, Mukherji SK, Smith MM, Weissman JL. Imaging of Bezold's abscess. *AJR.* 1998;171:1491–1495.
4. Schwager K. Reconstruction of middle ear malformations. *GMS Curr Top Otorhinolaryngol Head Neck Surg.* 2007;6:Doc01.
5. Osma U, Cureoglu S, Hosoglu S. The complications of chronic otitis media: report of 93 cases. *J Laryngol Otol.* 2000;114:97-100.
6. Furukawa K, Arai E, Kobayashi T, Takasaka T. [A case of Bezold's abscess associated with cholesteatoma]. [Abstract] *Nihon Jibiinkoka Gakkai Kaiho.* 1992;95(12):1901-19055.
7. McMullan B. Bezold's Abscess: A Serious Complication of Otitis Media. *J Pediatr Child Health.* 2009;45(10):616-618.
8. Marioni G, Fillipis CD, Tregnaghi A, Marchese-Ragona R, Staffieri A. Bezold's Abscess in Children: Case Report and Review in Literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2001;61(2):173-177.
9. Abdel-Aziz M. Congenital cholesteatoma of the infratemporal fossa with congenital aural atresia and mastoiditis: a case report. *BMC Ear Nose Throat Disord.* 2012;12:6.
10. Sone M, Naganawa S, Yoshida T, Nakata S, Nakashima T. Imaging findings in a case with cholesteatoma in complete aural atresia. *Am J Otolaryngol.* 2010;31(4):297-9.

How to cite this article:

Rashid RJ, Naderpour M, Habibzadeh A, Jalili J, Mozayyan M. A Case of Bezold's Abscess with an Unusual Extension to the Upper Thorax. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 148-50.



Forgotten Surgical Needle in the Anterior Abdominal Wall: A Case Report

Batın Ön Duvarında Unutulan Cerrahi İğne: Olgu Sunumu

Operasyonda Unutulan Cerrahi İğnesi Olgusu / A Case of Forgotten Surgical Needle

Ali Akdemir¹, Deniz Şimsek¹, Ahment Özgür Yeni¹, Celal Çınar², Ahmet Mete Ergenoğlu¹

¹Kadın Hastalıkları ve Doğum AD, ²Girişimsel Radyoloji AD, Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi, İzmir, Türkiye

Özet

Batın cerrahileri sonrası operasyon bölgesinde yabancı madde unutulması nadirdir ancak gerçek sıklığı bilinmemektedir. Hastalar genellikle asemptomatik olmakla beraber karın ağrısı, bulantı kusma, karında şişlik gibi belirtiler verebilirler. Ayrıca apse, sepsis ve fistülleşme görülebilir. Yabancı cisimlerin tespit edilmesi için direkt grafi, ultrasonografi ve bilgisayarlı tomografi kullanılabilir. Yabancı cisim sapta olduğunda zaman kaybetmeden bulunduğu bölgeden çıkartılması gerekmektedir. Bu olgu sunumunda batın ön duvarında unutulan cerrahi iğnesinin skopi yardımı ile çıkarılması olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Cerrahi Komplikasyon; Skopi; Unutulmuş Cerrahi İğne

Abstract

Forgetting of foreign matters in the operation area after the abdominal surgery is rare but the actual incidence is unknown. Patients are usually asymptomatic but they can have symptoms such as abdominal pain, nausea, vomiting and abdominal swelling. Abscess, sepsis, and fistula formation may also happen. Radiography, ultrasonography and computed tomography can be used for the detection of foreign bodies. Foreign objects should be removed from the area of detected without delay. In this case report, forgotten surgical needle in the anterior abdominal wall, is removed with the aid of fluoroscopy.

Keywords

Surgical Complications; Fluoroscopy; Forgotten Needle

DOI: 10.4328/JCAM.2079

Received: 01.10.2013 Accepted: 24.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 151-3

Corresponding Author: Ali Akdemir, Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi Hastanesi Kadın Hastalıkları ve Doğum AD. 35040, Bornova, İzmir, Türkiye.

T.: +905056748904 F.: +90 2323430711 E-Mail: akdemir_ali78@yahoo.com

Giriş

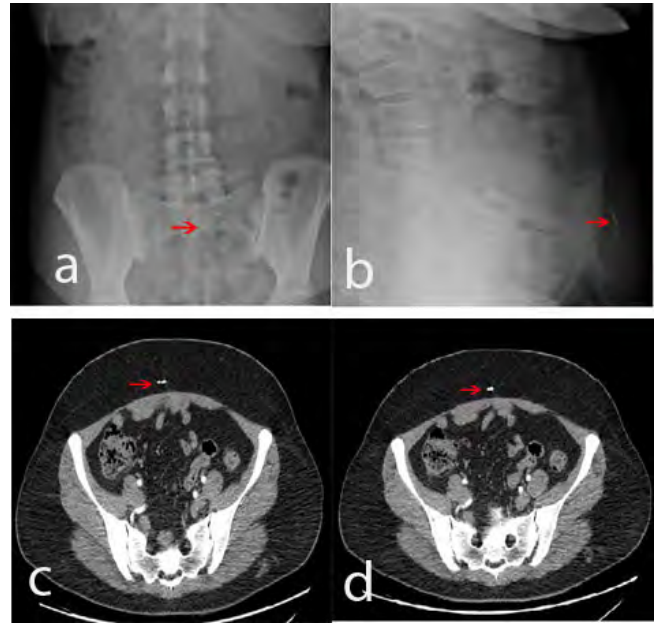
Cerrahi işlemler sırasında operasyon sahasında yabancı cisimlerin (cerrahi alet, spanç, iğne vb.) unutulması nadir rastlanan bir durumdur. Literatürde batin ön duvarı içerisinde ve/veya cilt altında unutulmuş yabancı cisimler ile ilgili geniş kapsamlı çalışmalar bulunmasa da karın içinde unutulmuş cisimlerin sıklığının yaklaşık olarak 1000-1500 intra-abdominal operasyonda bir olduğu belirtilmektedir [1-2]. Ancak yasal sorunlara yol açabilmesi, her vakanın bildirilmemesi ve çoğu hastanın asemptomatik olması nedeniyle gerçek sıklık tahmin edilenden çok daha yüksek düzeydedir. Karın cerrahisi sonrasında unutulmuş cerrahi aletler, gaz kompres ve drenler; barsak tıkanıklığı, peritonit, yapışıklık, apse oluşumu ve fistül oluşumu gibi birçok komplikasyona neden olabilmektedir [2].

Bu durumlarda hasta uzun süre semptomsuz kalabileceği gibi bu komplikasyonlar hastanın hayatını kaybetmesine dahi sebep olabilmektedir [3]. Batin ön duvarı ve cilt altı dokusunda unutulmuş yabancı cisimler de yıllarca asemptomatik kalabilir. Semptomatik olanlar ise karın ağrısı, enfeksiyon, fistül oluşumu gibi sorunlara neden olabilir.

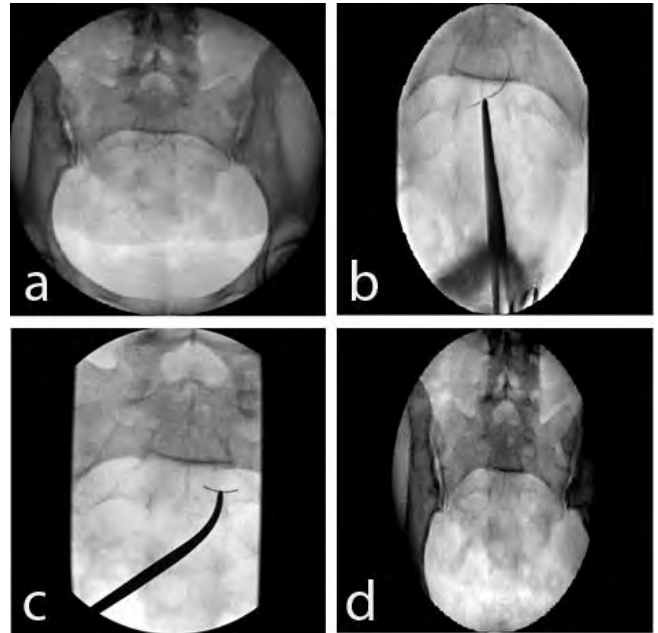
Makalemizde 3 kere sezaryen ile doğum öyküsü olan ve başvurusundan 1.5 yıl önce abdominal total histerektomi ve bilateral salpingo-ooferektomi ameliyatı olan 48 yaşındaki hastanın cilt altında unutulmuş cerrahi iğne olgusunun yönetimi tartışılacaktır.

Olgu Sunumu

Kırk sekiz yaşındaki bayan hasta kronik sırt ağrısı nedeniyle yapılan tetkiklerinde batin içerisinde yabancı cisim (cerrahi iğne) ön tanısı ile kliniğimize yönlendirilmiştir. Hastanın özgeçmişinde 3 kez Pfannenstiel kesi ile sezaryen doğum ve aynı kesi ile abdominal total histerektomi ameliyat öyküsü bulunmaktaydı. Hasta kliniğimize başvurduğunda aktif şikayeti yoktu. Ayrıca yapılan batin muayenesinde ve jinekolojik bakışında da normal fizik muayene bulguları mevcuttu. Öncelikle hastaya direkt batin grafisi çekilerek hastanın vücudunda bir cerrahi iğne olduğu tespit edildi. İğnenin lokalizasyonun belirlenebilmesi amacıyla yan batin grafisi çekildi ve sonuçta iğnenin batin içerisinde değil de batin ön duvarı içerisinde olabileceğinden kuşkulandı. Bu durumun aydınlatılması için hasta Bilgisayarlı Tomografi (BT) ile değerlendirildi. Sonuçta iğnenin batin ön duvarında, Pfannenstiel kesi hattından 4 cm kranyalde, orta hattın 1 cm sağ lateralinde ve ciltten 3.5 cm derinde olduğu tespit edildi (Resim 1). Ameliyat için hastanın mevcut durumu kendisi ile tartışıldıktan ve yazılı onamı alındıktan sonra batin ön duvarı cilt altı yağ dokusunda cerrahi iğnenin skopi altında çıkartılmasına karar verildi. Müdahale öncesinde skopi ile yabancı cismin iz düşümü cilt üzerinde işaretlendi. İşaretlenen alana lokal anestezi uygulaması sonrası intravenöz sedasyon eşliğinde 1 cm lik cilt insizyonu yapıldı ve batin duvarı açılmadan skopi eşliğinde cerrahi klemp cilt altı yağ dokusuna ilerletildi ve cerrahi iğne tutularak çıkarıldı. İşlem sonrasında son bir skopik değerlendirme ile iğnenin tamamının çıkartıldığı gözlemlendi (Resim 2). Tüm işlem süresi 15 dakika olarak hesaplandı. Hasta aynı gün akşamında şifa ile taburcu edildi. Hasta taburcu olurken sefuroksim aksetil 500 mg tablet (günde iki kez) ve parasetamol 500 mg tablet (günde üç kez) reçete edilmiştir.



Resim 1. Direkt karın grafisi (A), Yan karın grafisi (B), Batin Tomografisi kesitleri (C-D). Oklar karın ön duvarında unutulmuş cerrahi iğneyi işaret etmektedir.



Resim 2. Skopi ile cerrahi iğnenin saptanması (A), Skopi eşliğinde cerrahi iğnenin cilt altından çıkartılması (B-C), Cerrahi iğne çıkartıldıktan sonra skopi görüntüsü (D).

Tartışma

Operasyon malzemelerinin hasta bedeninde unutulması cerrahi tarih kadar eskidir. Literatürde bildirilen ilk vaka 1884'te Wilson tarafından belirtilmiştir [4]. Cerrahi bilginin ve imkanların geçen yıllar boyunca gelişmesine rağmen hasta bedeninde yabancı maddelerin unutulması devam etmektedir. Sıklığı kesin bilinmemekle beraber 1/300 ile 1/3000 arasında değişmektedir. Gawende ve arkadaşlarının yapmış olduğu bir çalışmada batin içinde yabancı cisim unutulmasının sıklığı 1/8801 ile 1/18760 arasında olarak bildirmişlerdir [5]. Amerika Birleşik Devletleri'nde her yıl yaklaşık olarak 1500 vaka bildirimi olduğunu saptamıştır [5].

Cerrahi alanda unutulmuş yabancı cisimlerin medikolegal açıdan sorunlara neden olması bu vakaların bildiriminde eksikliklere neden olabilmektedir. İlave olarak unutulmuş bu cisimlerin hastalarda asemptomatik olarak kalması gerçeğin belirlenmesine

engel teşkil etmektedir.

Boyutunun küçük olması ve kan ile birleştiğinde ayırt edilmesi zor olduğu için en sık batın içinde spanç unutulmakla beraber gossypiboma adı verilmektedir. Gossypium (Latince, pamuk) ve boma (Svahilice, unutulan cismin yeri) kelimelerinden köken almaktadır [6]. En sık genel cerrahi (%52), jinekoloji (%22), üroloji/vasküler (%10) ve ortopedik/spinal kanal operasyonlarında (%8) spanç unutulmaktadır [7]. Apter ve arkadaşları [8] en sık jinekolojik işlemler sonrası batın içi yabancı cisim unutulduğunu bildirmişlerdir. Her ne kadar literatürde karın içerisinde unutulan cerrahi malzemeler ile ilgili bildirilere rastlansa da cerrahi malzemenin karın ön duvarında da unutulabileceği akılda tutulmalıdır. Bu önlenabilir durumun risk faktörleri ise; acil ameliyatlar, yüksek vücut kütle indeksine sahip hastalar, alışılmış cerrahi şeklinin değiştirilmesi ve operasyon sırasında cerrahi ekibin değişmesidir. Hastaları standardize edecek semptomlar ise genellikle yoktur. Erken dönemde batın içi apse veya sepsise neden olabilmekle beraber hastaların çoğu asemptomatiktir. Yabancı cisimler karın ağrısı, bulantı, kusma, apse ve fistül gibi şikayetlere sebep olabilirler. Fakat sıklıkla yabancı cisimler aseptik fibrinöz inflamatuvar reaksiyona neden olmaları, omentum ve çevre organlar tarafından enkapsüle edilmeleri nedeni ile ciddi semptomlar vermeyebilirler. Bu da hastaların genellikle asemptomatik kalmasına ve çoğunlukla da rastlantısal olarak teşhis edilmelerine neden olur. Bizim olgumuzda da hastada unutulmuş olan yabancı cisim farklı nedenler ile yapılan tetkikler sırasında tesadüfen saptanmıştır. Radyo-opak yabancı cisimlerin tespitinde direkt grafiler yararlı olmakla beraber, opak olmayan maddeler için ultrasonografi ve BT daha yararlı görüntü sağlamaktadır [9,10].

Yabancı cismin erken tespiti ve cerrahi olarak çıkarılması mortalite ve morbitide oranlarını düşürecektir. Yabancı cisim skopi eşliğinde vücut dışına alınması özellikle cerrahi diseksiyonu azaltarak daha az girişimsel olarak işlemin yapılmasını sağlayacaktır. Batın ön duvarında olan cisimlerin çıkartılmasında da skopin kullanılması hastaya uygulanacak müdahalenin daha az girişimsel olmasını sağlayacak ve operasyonunda süresini kısaltacaktır. Bizim olgumuzda işlem süresi anestezi uygulamasından kesi yerinin sütürasyonuna kadar 15 dakika sürmüştür ve işlem 1 cm lik cilt kesisinden gerçekleştirilmiştir.

Sonuç olarak cerrahi sonrası yabancı cisimlerin hasta bedeninde unutulması engellenebilir bir komplikasyon olmakla beraber bütün cerrahların çekindikleri bir durumdur. Operasyon öncesi cerrahi aletlerin sayımının yapılıp görülebilir bir yere yazılması, pamuklu maddeleri radyoopak madde ile işaretlenmesi, operasyonda kullanılan aletlerin sayımı ile bitirilmesi yabancı cisim unutulmasını azaltacaktır [6]. Daha önce cerrahi işlem geçirmiş hastalara operasyon öncesi direkt batın grafisi çekilmesi veya ultrasonografi ile batının gözlemlenmesi, daha önceki ameliyatlarda hasta vücudunda yabancı cisim varlığını göstermede yardımcı olsa da, çok da gerçekçi bir yaklaşım olarak algılanmamaktadır [6,7]. Kendi vakamızda da olduğu gibi, direkt grafi ile saptanan iğnenin yerinin tespiti için yan grafi çekilmesi iğnenin batın içinde değil, batın ön duvarında olduğunun saptanmasına yardımcı olacaktır. Ek olarak, yabancı cismin kesin lokalizasyonu için BT daha net görüntü sağlayacaktır. Yabancı cisimlerin çıkartılması sırasında skopin işlemi kolaylaştıracağı da akıldan çıkartılmamalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Hyslop JW, Maull KI. Natural history of the retained surgical sponge. South Med J 1982;75(6):657-60.
2. Jason RS, Chisolm A, Lubetsky HW. Retained surgical sponge simulating a pancreatic mass. J Natl Med Assoc 1979;71(5):501-3
3. Büyük Y, Üzün İ, Coşkun A, Eryılmaz R. Fatal outcome of retained surgical instrument following abdominal surgery: An autopsy case. Nobel Med 2007;3(1):27-29.
4. Wilson C. Foreign bodies left in the abdomen after laparotomy. Gynecol Tr 1884 ;9:109-112.
5. Gawande AA, Studdert DM, Orav EJ, Brennan TA, Zinner MJ. Risk factors for retained instruments and sponges after surgery. N Engl J Med 2003;348(3):229-235.
6. Lauwers PR, Hee RHV. Intraperitoneal gossypiboma: the need to count sponges. World J Surg 2000;24(5):521-7.
7. Yamamura N, Nakajima K, Takahashi T, Uemura M, Nishitani A, Souma Y, et al. Intraabdominal textiloma. A retained surgical sponge mimicking a gastric gastrointestinal stromal tumor. Surg Today 2008;38(6):552-4.
8. Apter S, Hertz M, Rubinstein ZJ, Zissin R. Gossypiboma in the early postoperative period: a diagnostic problem. Clin Radiol 1990;42(2):128-9.
9. Akar E. Dikkat edilmesi gereken bir komplikasyon. JCAM DOI:10.4328/JCAM.1712.
10. Gullupinar B, Sarihan A, Ersoy G. Eyvah! Yine İğne! Yabancı Cisim Aspirasyonu Olgusu. JCAM DOI:10.4328/JCAM.919.

How to cite this article:

Akdemir A, Şimsek D, Yeniel AÖ, Çınar C, Ergenoğlu AM. Forgotten Surgical Needle in the Anterior Abdominal Wall: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 151-3.



Incontinentia Pigmenti: A Case Report

İnkontinensiya Pigmenti: Bir Olgu Sunumu

İnkontinensiya Pigmenti / Incontinentia Pigmenti

İlknur Balta¹, Emine Ünal², Erdem Vargöl³, Dilek Sarıcı⁴, Adem Yasin Köksoy⁴

¹Keçiören Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Dermatoloji Kliniği,

²Yenimahalle Devlet Hastanesi, Dermatoloji Kliniği, ³Keçiören Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Bölümü,

⁴Keçiören Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Kliniği, Ankara, Türkiye

Özet

İnkontinensiya pigmenti, nadir görülen, X'e bağlı dominant bir hastalıktır. Deri lezyonları sıklıkla yenidoğan döneminde ortaya çıkar ve hiperpigmentasyona yol açan 4 klasik dönem ile karakterizedir. Dişler, gözler, kemikler ve santral sinir sistemi gibi ektodermal dokular da etkilenebilir. İnkontinensiya pigmentinin tanısı klinik bulgular ile konur, nadiren deri biyopsisi gerekebilir. Burada, gövde ve ekstremitelerde lineer dağılım gösteren eritem ve veziküller ile başvuran 4 günlük yenidoğan olguyu sunuyoruz.

Anahtar Kelimeler

İnkontinensiya Pigmenti; Yenidoğan; Veziküler Evre

Abstract

Incontinentia pigmenti is a rare, X-linked dominant disease. Skin lesions occur mostly during the neonatal period and are characterized by a classic progression in 4 stages leading to hyperpigmentation. Additionally, incontinentia pigmenti can affect ectodermal tissues such as the skin, teeth, eyes, bones, and the central nervous system. The diagnosis of incontinentia pigmenti is established by clinical findings and occasionally by corroborative skin biopsy. Herein, we report on the case of a female neonate presenting on the 4th day of life with erythema and vesicles in linear distribution on the extremities and trunk.

Keywords

Incontinentia Pigmenti; Newborn; Vesicular Stage

DOI: 10.4328/JCAM.2090

Received: 11.10.2013 Accepted: 25.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 154-6

Corresponding Author: İlknur Balta, Keçiören Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Dermatoloji Kliniği, Keçiören, Ankara, 06290, Türkiye.

T.: +90 3123569000 F.: +90 3123562124 E-Mail: drilknurderm@yahoo.com

Giriş

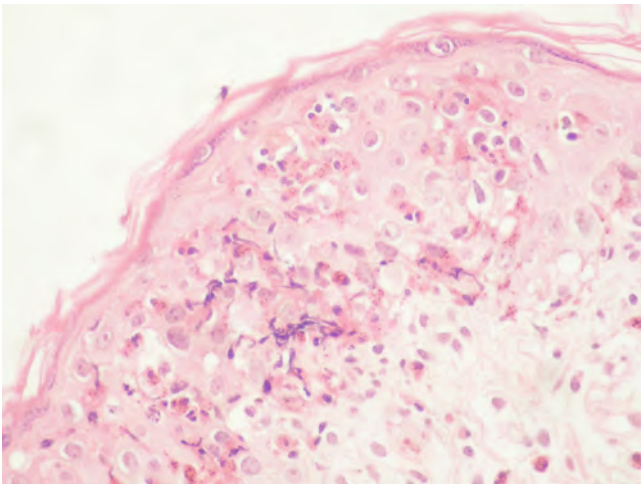
İnkontinensiya pigmenti (İP), Bloch-Sulzberger sendromu olarak ta bilinir. Deri, santral sinir sistemi, göz ve iskelet sistemini etkileyebilen, X'e bağımlı dominant geçişli bir genodermatozdu. X kromozomunda yerleşen NF-KB esansiyel modülatör (NEMO) genindeki mutasyonlar hastalığa yol açar [1,2]. Homozigot erkek bireyler için letal bir durum olan İP hastalarının % 97'si kadındır, literatürde hastalığın tanımlandığı az sayıda erkek hastada İP'nin Klinefelter sendromu (XXY genotipi) ile birliktelik gösterdiği veya mozaik formda bulunduğu bildirilmiştir[3-5]. Burada tipik klinik ve histopatolojik bulguları ile İP tanısı alan yenidoğan bir olgu sunulmaktadır.

Olgu Sunumu

Yirmi yaşındaki annenin ilk gebeliğinden doğan 4 günlük kız bebek, gövde, kol ve bacaklarında içi su dolu kabarcıklar şikayeti ile polikliniğimize başvurdu. Bu kabarcıklar doğduğu gün çıkmaya başlamış ve zamanla tüm vücuduna yayılmıştı. Özgeçmiş ve soygeçmişinde özellik yoktu. Hastanın vital bulguları stabil ve genel durumu iyiydi. Dermatolojik muayenede gövde ve ekstremitelerde lineer, Blaschko çizgilerini takip eden eritemli plakları ve bu plaklar üzerinde gözlenen vezikülleri saptandı (Resim 1). Histopatolojik incelemede epidermis içerisine belirgin infiltrasyon gösteren eozinofil lökositler ve epidermiste eozinofil lökositlerin oluşturduğu mikroapse formasyonları saptandı (Resim 2). Hastaya klinik ve histopatolojik bulgular



Resim 1. Her iki alt ekstremit ve gövdede lineer yerleşimli eritemli, veziküler lezyonlar



Resim 2. Epidermis içerisine belirgin infiltrasyon gösteren eozinofil lökositler (H&E, 400x)

verrüköz evre hastaların yaklaşık % 70-80'inde görülür. İki ile altıncı hafta arasında başlar. Ekstremit, gövde ve daha nadir olarak baş-boyun bölgesinde kalın, verrüköz plaklar gözlenebilir. Hiperpigmente lezyonların görüldüğü 3. evrede ise Blaschkoid yerleşim gösteren kahverengi-gri renkli makül ve yamalar izlenir ve bu lezyonlar daha önce vezikül veya verrüköz plak gelişmemiş alanlarda da gözlenebilir. Meme ucu, aksilla ve inguinal bölge en sık etkilenen alanlardır. Dördüncü evrede gözlenen atrofik lezyonlar hastaların % 30-70'inde tanımlanmıştır. Genellikle adolesan dönemde gelişen ve erişkin dönemde de kalıcı olarak seyreden bu lezyonlar alt ekstremitelerde lineer veya retiküler tarzda hipopigmente, atrofik yamalar şeklinde görülürler[1-3]. İP hastalarında, deri dışında, saç, diş, tırnak, göz ve santral sinir sistemi değişiklikleri de izlenebilmektedir. Vertekste skatrisyel alopesi, en sık rastlanan saç bulgusudur ve hastaların % 38'inde görülür. Kaş ve kirpiklerde hipotrikoz da gözlenebilir. Tırnak distrofisi prevalansı tam olarak bilinmemekle birlikte, % 7-40 arasında tahmin edilmektedir. Erken çocukluk çağına gözlenen tırnak anomalileri arasında, tırnaktaki distrofi, tırnak plağında çukurlanma (pitting) ve longitudinal tepelenme ve onikoliz sayılabilir. İlerleyen yaşlarda (puberte ile 3. dekad arasında) subungual ve periungual bölgelerde keratotik tümörler görülebilir[1-2]. Dental anomaliler olguların % 80'inde görülür. Diş çıkarmada gecikme, parsiyel anodonti, konik dişler en sık gözlenen dental anomalilerdendir [6].

Oküler bulgular olguların % 20-85'inde görülür. Tipik olarak retinal ve retinal olmayan bulgular olarak ikiye ayrılır. Retinal bulgular arasında foveal hipoplazi, retinal pigment anomalisi, vitreusta kanama ve retina dekolmanı sayılabilir. Retinal olmayan bulgular arasında şaşılık, nistagmus, optik sinir atrofisi, konjonktival pigmentasyon, iris hipoplazisi ve üveit bulunur[7]. Nörolojik bulgular olguların yaklaşık % 30'unda saptanmıştır. Nörolojik bulgular arasında spastik paralizi, mental retardasyon, mikrosefali, epilepsi, serebellar ataksi ve gelişme geriliği bulunmaktadır[8].

İP'nin tanısı için Landy ve Donnai tarafından ileri sürülen tanı kriterleri Tablo 1'de gösterilmiştir. Aile hikayesi olmayan olgularda en az bir major kriterin varlığı gerekmekte, minör kriterlerin varlığı tanıyı desteklemektedir. Ailede İP hikayesi olması durumunda major kriterlerden herhangi birinin varlığı tanıyı kuvvetle destekler[1].

Tablo 1. İnkontinensiya pigmenti tanısı için ileri sürülen tanı kriterleri

1.derece akrobada inkontinensiya pigmenti öyküsü	Major kriter	Minör kriter
Yok	Tipik neonatal dönem döküntüsü; eritemli papül, vezikül ve eozinofili	Dental anomali
	Özellikle gövde yerleşimli Blaschko çizgilerini izleyen hiperpigmente yamalar	Alopesi
	Lineer, atrofik, kıl kaybı olan yamalar	Tırnak değişiklikleri
	Tipik döküntüye dair hikaye; hiperpigmentasyon, atrofik, kıl kaybı olan yamalar	Retinal hastalık
Var	Vertekste alopesi	
	Dental anomaliler	
	Retinal hastalık	
	Multipl erkek bebek abortusu	

İP'nin histopatolojik incelemesi de evrelere göre değişkenlik gösterir. Veziküler evrede intraepidermal ve dermal eozinofilinin eşlik ettiği spongiotik dermatit izlenir. İkinci evrede çok sayıda diskeratotik hücreler ve hiperkeratozun eşlik ettiği epidermal hiperplazi tipiktir. Üçüncü evrede en yaygın histopatolojik bulgu, kalınlaşmış papiller dermisteki melanofajlarda melanin depolanmasının yol açtığı pigment inkontinensidir. Dördüncü evrede atrofik epidermis izlenir[1]. Bizim olgumuzun hem klinik, hem de histopatolojik bulguları birinci evre İP ile uyumlu idi.

İP'nin ayırıcı tanısı, hastalığın evrelerine göre değişkenlik gösterir. İP'nin ilk dönemi yenidoğanın vezikülobüllöz lezyonları ile karışabilir. Büllöz impetigo, herpes simpleks ve varisella infeksiyonu, viral ve bakteriyel kültürler ile İP'den ayırt edilebilir. Langerhans hücreli histiositoz da yenidoğan döneminde papüloveziküler lezyonlarla seyredebilir. Histopatolojik inceleme ile İP'den kolaylıkla ayırt edilir. Dermatitis herpetiformis ve epidermolizis büllöza gibi immün aracılı büllöz hastalıklar ise tipik histopatolojik ve direk immünfloresan bulgularına sahiptirler[9]. Verrüköz plakların gözlemlendiği ikinci evre ise verrü, lineer epidermal nevüs ve liken striatus ile karışabilir. Lineer epidermal nevüs lezyonları persistandır. Öncesinde vezikülobüllöz lezyonlar olmadığı gibi sonrasında hiperpigmentasyon da izlenmez. Liken striatus histopatolojik olarak likenoid patern gösterdiğinden İP'den kolaylıkla ayırt edilebilir. Hiperpigmentasyon evresi, pigmenter mosaicism, nevoid hipermelanozis ve X-bağımlı punktat kondrodisplazi ile karışabilirken; son evrede görülen atrofik lezyonlar, Goltz sendromu ve pigmenter mosaicism ile karışabilir[1].

Hastalığın tedavisi semptomatiktir. Veziküler evrede sekonder bakteriyel infeksiyona engel olmak için topikal antibiyotikler önerilebilir[2].

Nadir görülen bir dermatoz olmakla birlikte, İP tanısında dermatologlar önemli bir role sahiptir. Ailelerin hem sistemik tutulum, hem de genetik danışmanlık açısından yönlendirilmesi için erken tanı önemli olup, bu nedenle dermatologlara büyük görev düşmektedir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

- Berlin AL, Paller AS, Chan LS. Incontinentia pigmenti: a review and update on the molecular basis of pathophysiology. *J Am Acad Dermatol*. 2002;47(2):169-87.
- Ergin S, Evans SE. What is your diagnosis? *Turkish Journal of Dermatology* 2009;3(2):52-4.
- Lee Y, Kim S, Kim K, Chang M. Incontinentia pigmenti in a newborn with NEMO mutation. *J Korean Med Sci*. 2011;26(2):308-11.
- Ardelean D, Pope E. Incontinentia pigmenti in boys: a series and review of the literature. *Pediatr Dermatol*. 2006;23(6):523-7.
- Gupta KD, Padhiar BB, Karia UK, Shah BJ. Case reports of incontinentia pigmenti in males. *Indian J Dermatol*. 2013;58(4):328.
- Minić S, Trpinac D, Gabriel H, Gencik M, Obradović M. Dental and oral anomalies in incontinentia pigmenti: a systematic review. *Clin Oral Investig*. 2013;17(1):1-8.
- Emre S, Firat Y, Güngör S, Firat AK, Karıncaoğlu Y. Incontinentia pigmenti: a case report and literature review. *Turk J Pediatr*. 2009;51(2):190-4.
- Meuwissen ME, Mancini GM. Neurological findings in incontinentia pigmenti; a review. *Eur J Med Genet*. 2012;55(5):323-31.
- Sahn EE. Vesiculopustular disease of neonates and infants. *Curr Opin Pediatr* 1994; 6(4):442-6.

How to cite this article:

Balta İ, Ünal E, Vargöl E, Sarıcı D, Köksoy AY. Incontinentia Pigmenti: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 154-6.



Reanastomosis with Stapler in Duodenojejunal Junction Anastomosis Leakage: A Case Report

Duodenojejunal Bileşke Anastomoz Kaçağında Stapler ile Reanastomoz: Vaka Sunumu

Anastomoz Kaçağında Stapler ile Reanastomoz / Reanastomosis with Stapler in Anastomosis Leakage

Ahmet Seker¹, Resit Ciftci¹, İrfan Eser², Alpaslan Terzi¹, Ali Uzunkoy¹, Yusuf Yucel¹

¹Genel Cerrahi AD, ²Göğüs Cerrahi AD, Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi, Şanlıurfa, Türkiye

19-23 Nisan 2013 tarihinde Belek/Antalya'da düzenlenen IX. Ulusal Travma ve Acil Cerrahi Kongresi'nde poster bildirisi olarak yayınlanmıştır.

Özet

Anastomoz kaçakları sonrası hasta tedavisi zorlaşmakta ve mortalite oranları artmaktadır. Gastrointestinal sistemin aşağı seviyelerindeki anastomoz kaçaklarında daima bir ostomi alternatifi var olduğu için beslenme ile ilgili komplikasyonlar az görülmektedir. Üst gastrointestinal sistem anastomoz kaçaklarında ise hastanın beslenme durumu göz önüne alındığında anastomoz yapma gerekliliği artmaktadır. Bu nedenle mortalite oranları da artmaktadır. Bu makalede, duodenojejunal bileşke anastomoz kaçağı olan bir hastanın tedavisinde uyguladığımız farklı bir reanastomoz tekniğini sunmayı amaçladık.

Anahtar Kelimeler

Anastomoz; Kaçak; Reanastomoz

Abstract

After anastomosis leakages, treatment of patient gets more difficult and mortality rates increase. At lower level gastrointestinal anastomosis leakages, because of always there is an ostomy alternative, digestion problems are seen lesser. But at upper level gastrointestinal system anastomosis leakages, when it is taken account of nutrient condition of patient, requirement of making anastomosis increases. So mortality rates increase. At this article we aimed to present a different technique that we administered on management of a patient who had duodenojejunal junction anastomosis leakage.

Keywords

Anastomosis; Leakage; Reanastomosis

DOI: 10.4328/JCAM.2087

Received: 07.10.2013 Accepted: 28.10.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 157-9

Corresponding Author: Ahmet Şeker, Harran Üniversitesi Tıp Fakültesi Genel Cerrahi Anabilim Dalı, Yenişehir Kampüsü, Posta kodu: 63300, Şanlıurfa, Türkiye.

T.: +90 4143183027 F.: +90 4143189192 E-Mail: drsekerahmet@hotmail.com

Introduction

Anastomotic Leakage is one of most serious complications seen after gastrointestinal surgery. Risk factors for anastomotic leakage are manifested in various studies. These risks may be listed as male sex [1], urgent surgery [1], smoking and alcohol [2], The American Society of Anesthesiologists (ASA) score [3], obesity [4], prolonged surgery time [3], low albumin level [5], increased intraoperative blood loss [5] and use of vasopressors [6]. We aimed to present a different procedure on a patient who was referred to our clinic because of leakage occurred two times after the anastomosis which made for full-thickness intestinal injury on duodenojejunal junction at Ligament of Treitz level.

Case Report

27 years old male patient was operated because of shrapnel injury after bomb explosion in Syria and full-thickness injury on duodenojejunal junction was repaired primarily. Patient who was reoperated because of anastomosis leakage at postoperative 7th day was referred to our clinic because of leakage of second anastomosis too. Patient was operated after necessary resuscitations. At abdominal exploration, partial division was detected on anastomosis which was on duodenojejunal junction at Ligament of Treitz level. Congestion of first 10 cm of jejunum which is presented at distal of anastomosis was degenerated. We seperated the anastomosis completely. Nearly 3 cm from 4th part of duodenum was seperated by dissection of Ligament of Treitz. 31 mm circular stapler anvil was fixed to duodenal end with purse string suture. Congestion of 10 cm of jejunal end was degenerated and this part resected than circular stapler was entered from jejunal end, and nearly 5 cm forward duodenojejunal end/side anastomosis was made up. It was seen that tissues wich left inside of stapler were full thickness and circular. Than jejunal end was closed by using linear stapler. To prevent the anastomosis, from lateral side of second part of duodenum, Witzel style tube duodenostomy was put (Fig. 1a, b, c). Abdomen was closed after drains left to intraabdominal cavity. At 6th day patient had no problem and on this day it was seen that there was no leakage, by imaging passage graphy via duodenostomy (Fig. 2). Patient was allowed to have oral nutrients. 15th day tube duodenostomy was ejected and the patient was discharged with full recovery.

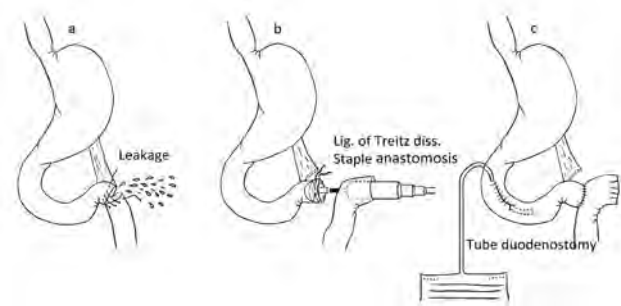


Figure 1. Anastomosis leakage (A), Separation of ligament of treitz and preperation for stapler anastomosis(B), Anastomosis and tube duodenostomy (C).

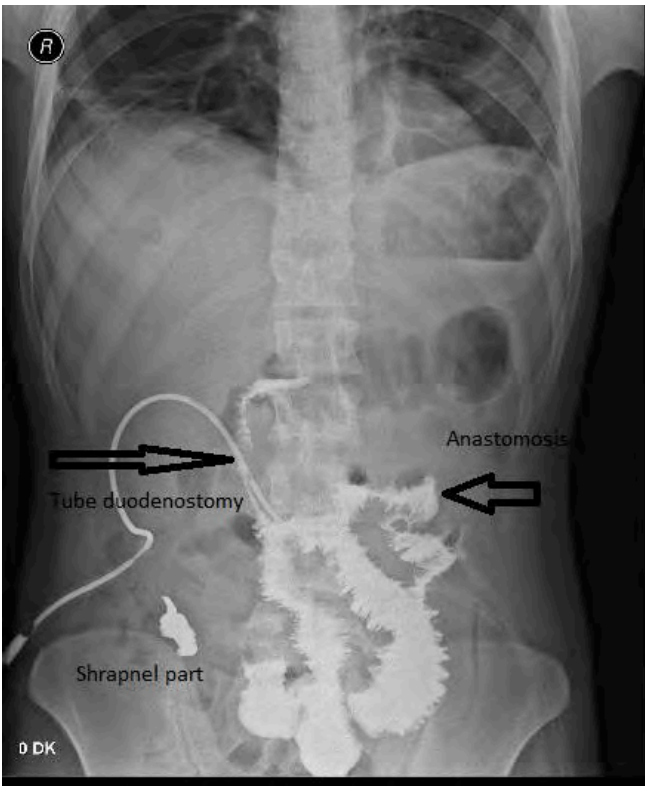


Figure 2. Imaging of anastomosis passage by giving opaque material via tube duodenostomy

Discussion

Anastomosis leakage is one of most severe surgical complications [7]. Incidence of this complication differs in various studies nonetheless Haga et al. reported between 1,3% and 19,6% with 4,1% average [7]. Mortality rates varies between 0-18,4% [7]. Mortality of duodenal injuries are nearly 17% [8]. After anastomosis leakage treatment of patient gets more difficult and mortality rates increases. At lower level gastrointestinal anastomosis leakages, because of a lays there is an ostomy alternative mortality risk is in proportion to low, nonetheless at upper level gastrointestinal anastomosis leakages, when it is taken account of nutrient condition of patient it is possible to say that desire of making anastomosis a bit more increases and so this situation increases the mortality rate. Our patient was operated two times by reason of duodenojejunal injury and anastomosis leakage occurred after both operations. We operated patient and because of anastomosis leakage at Ligament of Treitz level, taking into account that it was difficult to make the anastomosis manually, according as esophagojejunal anastomosis which made after total gastrectomy, we made end/side anastomosis by using circular stapler. To prevent the passage that we made anastomosis, tube duodenostomy was performed with Witzel Technique. When we ascertained literature, on an anastomosis leakage made for a like this injury, we didn't come upon a procedure that is similar to ours. Therefore we wanted to present the new surgical technique that we made.

Conclusion

As a result we saw that, when it is considered that it is necessary to try anastomosis alternative firstly, at injuries which it is difficult to make anastomosis manually, to maket he anas-

tomosis with stapler will be more suitable. Also, we witnessed benefits of tube duodenostomy to prevent the anastomosis.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Lipska MA, Bissett IP, Parry BR, Merrie AE: Anastomotic leakage after lower gastrointestinal anastomosis: men are at a higher risk. *ANZ journal of surgery* 2006, 76(7):579-585.
2. Sorensen LT, Jorgensen T, Kirkeby LT, Skovdal J, Vennits B, Wille-Jorgensen P: Smoking and alcohol abuse are major risk factors for anastomotic leakage in colorectal surgery. *The British journal of surgery* 1999, 86(7):927-931.
3. Choi HK, Law WL, Ho JW: Leakage after resection and intraperitoneal anastomosis for colorectal malignancy: analysis of risk factors. *Diseases of the colon and rectum* 2006, 49(11):1719-1725.
4. Rullier E, Laurent C, Garrelon JL, Michel P, Saric J, Parneix M: Risk factors for anastomotic leakage after resection of rectal cancer. *The British journal of surgery* 1998, 85(3):355-358.
5. Telem DA, Chin EH, Nguyen SQ, Divino CM: Risk factors for anastomotic leak following colorectal surgery: a case-control study. *Archives of surgery* 2010, 145(4):371-376; discussion 376.
6. Zakrisson T, Nascimento BA, Jr., Tremblay LN, Kiss A, Rizoli SB: Perioperative vasopressors are associated with an increased risk of gastrointestinal anastomotic leakage. *World journal of surgery* 2007, 31(8):1627-1634.
7. Haga Y, Wada Y, Takeuchi H, Ikejiri K, Ikenaga M: Prediction of anastomotic leak and its prognosis in digestive surgery. *World journal of surgery* 2011, 35(4):716-722.
8. Ivatury RR, Malhotra AK, Aboutanos MB, Duane TM: Duodenal injuries: A review. *Eur J Trauma Emerg S* 2007, 33(3):231-237.

How to cite this article:

Seker A, Ciftci R, Eser İ, Terzi A, Uzunkoy A, Yucel Y. Reanastomosis with Stapler in Duodenojejunal Junction Anastomosis Leakage: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 157-9.



Recurrent Suicide Attempt With Amitriptyline in a Patient with Depressive Mood Disorder

Depresif Duygu Durum Bozukluğu Olan Bir Hastada Amitriptilin ile Tekrarlayan Özkiym Girişimi

Amitriptilin ile Tekrarlayan Özkiym Girişimi / Recurrent Suicide Attempt with Amitriptyline

Hızır Ufuk Akdemir¹, Pınar Henden¹, Şahin Çolak², Latif Duran¹, Celal Katı¹

¹Ondokuz Mayıs Üniversitesi Tıp Fakültesi, Acil Tıp Anabilim Dalı, Samsun,

²Haydarpaşa Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Acil Tıp Kliniği, İstanbul, Türkiye

Özet

Birçok ülkede ilk on ölüm nedeninden biri olan özkiymalarda en sık görülen girişim yolu yüksek doz ilaç alımıdır. Özkiym girişimlerinin büyük bir kısmında genellikle alta yatan psikiyatrik bir bozukluk vardır. Bu hastalarda en sık depresif bozukluk görülür. Özkiym girişimine neden olan psikiyatrik bozuklukların yanı sıra kişilik bozukluklarının da tanımlanması son derece önemlidir. Trisiklik antidepresan alımı acil servise sık başvuru nedenlerinden biridir. Bu yazıda acil servise tekrarlayan yüksek doz amitriptilin alımı ile özkiym girişimi sonucu getirilen bir olgu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Amitriptilin; Özkiym; Depresyon; Zehirlenme

Abstract

High-dose drug intake is one of the most common attempts in suicide which is one of the first ten cause of death in many countries. There is an underlying psychiatric disorder in the majority of suicide attempts. Depressive disorder is seen most commonly in these patients. The identification of psychiatric disorders as well as personality disorders causing the suicidal attempt are extremely important. The intake of tricyclic antidepressant is a common reason of the admission to the emergency service. A case admitted to emergency service due to suicidal attempt with recurrent high-dose amitriptyline intake is presented in this article.

Keywords

Amitriptyline; Suicide; Intoxication; Depression

DOI: 10.4328/JCAM.2121

Received: 27.10.2013 Accepted: 02.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 160-2

Corresponding Author: Hızır Ufuk Akdemir, Ondokuz Mayıs Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Acil Tıp Anabilim Dalı, Samsun, Türkiye.

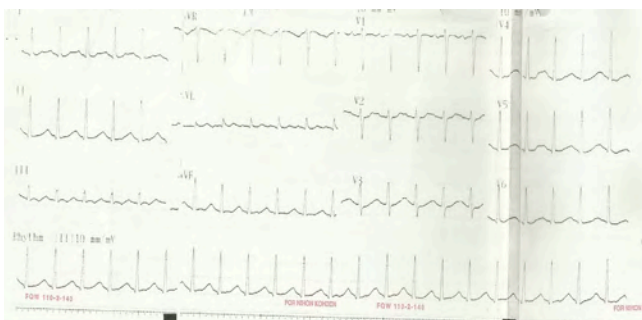
GSM: +905323331743 F.: +90 3624576041 E-Mail: hufukakdemir@hotmail.com

Giriş

Önemli bir halk sağlığı sorunu olan özkiyım Dünya Sağlık Örgütü (DSÖ) verilerine göre ilk on ölüm nedeni arasında olup tüm ölümlerin yaklaşık %0.9'undan sorumludur [1]. Özkiyım girişimi ile ilişkisi en fazla gösterilmiş olan psikiyatrik bozukluk depresyondur [2]. Bunun yanı sıra özkiyımlarda bireyin kişilik özellikleri de önemlidir. Özkiyım girişiminde bulunan hastalar genellikle olgunlaşmamış, ben merkezci, aşırı bağımlılık gereksinimleri olan, dürtü kontrolleri zayıf bireylerdir [1, 3]. Özkiyım girişimlerinin büyük çoğunluğunu ilaç alımları oluşturmaktadır. Trisiklik antidepresan (TSA) zehirlenmeleri ilaç alımı nedeni ile acil servise başvurular içinde önemli bir yer tutmaktadır [4]. Bu yazıda depresif duygu durum bozukluğu tanısı ile takipte olan ve yüksek doz amitriptilin alarak acil servise tekrarlayan özkiyım girişimleri nedeni ile başvuran on sekiz yaşında bir olgunun fizik muayene ve laboratuvar bulguları ile izlem, tedavi ve sonuçları sunulmuştur.

Olgu Sunumu

On sekiz yaşında kadın hasta bilinç değişikliği ve ajitasyon nedeniyle acil servisimize getirildi. Hasta yakınlarından, hastanın yaklaşık 4 saat önce 25 mg amitriptilin içeren ilaçtan 40 adet aldığı öğrenildi. Hastaya ilk başvurduğu hastanede mide lavajı ve aktif kömür uygulanmıştı. Başvuru anında Glasgow Koma Skalası (GKS) skoru 6 olan hasta entübe edilerek mekanik ventilatöre bağlandı. Fizik muayenede: kan basıncı: 100/60 mmHg, na-biz: 120 atım/dakika, solunum sayısı: 20/dakika ve ateş: 36,1 °C idi. Fizik muayenesinde ek özellik saptanmayan hastanın çekilen elektrokardiyogramı (EKG)'sinde kalp hızı 132 atım/dakika, QRS süresi 84 ve QTc 412 msn idi (Şekil 1). Laboratuvar tetkiklerinde: lökosit: 9770/uL, Hb: 11.6 g/dL, PLT: 175000/uL idi. Kan gazı incelemesinde pH: 7.3, pCO₂: 36.4 mmHg, pO₂: 139 mmHg, HCO₃: 21.4 mmol/L, BE: -3.2 mmol/L ve O₂Sat: %98.7 idi. Hastanın akciğer grafisinde akut bir patoloji tespit edilmedi. Özgeçmişinde dört kez daha amitriptilin alarak özkiyım girişimi öyküsü olan hastada klinik bulgular eşliğinde TSA (amitriptilin) intoksikasyonu düşünüldü. Başvuru anında entübe edilen hastaya serum fizyolojik (% 0.9 NaCl) infüzyonu başlandı. Nöbet aktivitesi ve/veya EKG değişikliği saptanmayan hastaya sodyum bikarbonat (NaHCO₃) tedavisi verilmedi. Destek tedavisi (hidrasyon, monitörizasyon ve mekanik ventilasyon) uygulanmaya başlanan hasta yoğun bakım ünitesine yatırıldı. Yaklaşık yirmi dört saat entübe takip edilen hasta bilincinin açılması üzerine ekstübe edilerek mekanik ventilatörden ayrıldı. Vital bulguları stabil seyreden ve takibinde ek problem olmayan hasta psikiyatri ile konsülte edildi. Psikiyatri bölümü tarafından depresif bozukluk tanısı ile sertralin tablet 50 mg/gün tedavisi başlanan



Şekil 1. Hastanın başvuru anında çekilen elektrokardiyografisi

hastada eksen 2 kişilik bozukluğu da olabileceği belirtilerek psikiyatri poliklinik kontrolü önerildi. Hasta yatışının beşinci gününde şifa ile taburcu edildi.

Yakınlarından, daha önce de dört defa amitriptilin alarak özkiyım girişimi öyküsü olduğu öğrenilen hastanın sadece önceki iki başvurusuna ait hastane kayıtlarına ulaşılabildi. Diğer iki başvurunun farklı hastanelere olmasından dolayı o döneme ait hasta bilgilerine ulaşılamadı. Yaklaşık 4,5 yıl önce hastanemize yapılan birinci başvuruda, bilinci uykuya meyilli ve uyandırıldığında ise ajite olan hastanın GKS skorunun 10 olarak değerlendirildiği, sinüs taşikardisi (yaklaşık 110/dakika) dışında ek patolojik fizik muayene, laboratuvar ve EKG bulgusunun olmadığı tespit edildi. Yine hastane kayıtlarından, hastanın 10 mg amitriptilin içeren ilaçtan 30 adet aldığı, destek tedavisi verilerek takip edildiği ve psikiyatri konsültasyonu sonucu depresif bozukluk düşünülerek sertralin tedavisi başlanarak yatışının üçüncü gününde şifa ile taburcu edildiği öğrenildi.

Yaklaşık dört yıl önce hastanemize yapılan diğer başvuruda ise hastanın 10 mg amitriptilin içeren ilaçtan 25-30 adet aldığı, bilincinin uykuya meyilli olduğu, GKS skorunun 9 olarak değerlendirildiği ve sevk edildiği kurumda mide lavajı yapılarak aktif kömür uygulandığı hastane kayıtlarından öğrenildi. Fizik muayene, laboratuvar ve EKG bulguları normal sınırlarda olan ve destek tedavisi uygulanarak takibe alınan hastanın psikiyatri konsültasyonu sonucu depresif bozukluk düşünülerek sertralin ve risperidon başlanarak yatışının ikinci gününde kendi isteği ile taburcu edildiği öğrenildi.

Tartışma

Trisiklik antidepresan (TSA) ilaçlar depresyon, nöropatik ağrı, migren, enürezis ve dikkat eksikliği-hiperaktivite bozukluğu gibi pek çok farklı endikasyonda kullanılmaktadır. Acil servise başvuru nedenleri arasında önemli bir yer tutan TSA zehirlenmeleri ölümlerle sonuçlanma potansiyeline sahiptir [4]. Tüm antidepresan ilaç zehirlenmeleri arasında TSA zehirlenmeleri diğerlerine göre daha sık görülmektedir [5]. TSA zehirlenmelerinde ise en sık karşılaşılan ilaç amitriptilin olup yarı ömrü 7-58 saat arasındadır. Terapötik doz aralığı 1-5 mg/kg olan TSA'ların özellikle 10 mg/kg'ın üzerinde alınmış olması ciddi toksisite ve mortalite riskine neden olur [6]. TSA zehirlenmelerinde ilaç düzeyinin belirlenmesinin akut tedavi yönetimine etkisi fazla değildir, ancak tanıyı desteklemek için katkısı vardır [5]. Hastamız toplam beş kez özkiyım amaçlı amitriptilin alan on sekiz yaşında bir kadın idi. Hastanın vücut ağırlığına göre hesaplanan amitriptilin dozu yaklaşık 16-17 mg/kg civarında olup ciddi toksisite aralığında idi. Teknik yetersizlikler nedeni ile kan ilaç (amitriptilin) düzeyi çalışılamadı. İlaç alımını takiben beşinci saatte acil servise getirilen hastada başvuru anında toksisite bulguları mevcuttu.

Şiddetli TSA zehirlenmelerinde her türlü ritm bozuklukları, nöbet, solunum depresyonu, koma ve hatta ölüm görülebilir [7]. Nöbet ve bilinç değişikliği merkezi sinir sistemi toksisitesinin önemli belirtilerindendir [5]. Hastamızda başvuru anında bilinç değişikliği (koma) ve taşikardi tespit edildi. Hasta acil serviste ilk değerlendirmesini takiben entübe edilerek mekanik ventilatöre bağlandı. Acil serviste başlanan destek tedavisine yoğun bakım ünitesinde de devam edildi. Yaklaşık yirmi dört saat entübe takip edilen hasta bilincinin açılması üzerine ekstübe edilerek mekanik ventilatörden ayrıldı.

Sinüs taşikardisi, sağ aks sapması, PR, QRS ve QT intervallerinde uzama TSA zehirlenmelerinde sık görülen EKG değişiklikleridir. Bu tip EKG değişiklikleri genellikle orta-ciddi toksisite durumunda ortaya çıkar [6]. Sinüs taşikardisi TSA zehirlenmelerinde en sık görülen kardiyak anormallik olmasına rağmen genellikle hemodinamik bozukluk oluşturmaz [5]. Destek tedavisi ile kalp hızı normal sınırlara gelen hastamızda sinüs taşikardisi dışında EKG değişikliği saptanmadı.

TSA zehirlenmelerinde erken dönemde mide lavajı ve aktif kömür (1 gr/kg dozunda) uygulanması önerilmektedir [6]. Hastamıza ilk başvurduğu hastanede erken dönemde mide lavajı ve aktif kömür uygulandığı epikrizden öğrenildi. Acil servisimize başvuru anında GKS skoru 6 olarak değerlendirilen hastaya entübasyon sonrası tekrarlayan aktif kömür uygulaması yapıldı.

TSA zehirlenmelerinde NaHCO₃ tedavisi endikasyonları: sıvı tedavisine yanıtız hipotansiyon, ventriküler disritmiler ve kardiyak ileti bozukluklarıdır [5]. QRS intervalı 100 msn üzerinde olan hastalara sodyum bikarbonat tedavisi başlanması önerilmektedir [5, 6]. Sinüs taşikardi dışında EKG değişikliği olmayan ve hipotansiyon saptanmayan hastaya sadece intravenöz serum fizyolojik (% 0.9 NaCl) infüzyonu uygulandı.

Özkıym, Dünya Sağlık Örgütü (DSÖ) verilerine göre ilk on ölüm nedeni arasında yer almaktadır [1]. İlaç zehirlenmeleri özkıym nedeni ile acil servise olan başvurular içinde önemli bir yer tutmaktadır. Özkıym girişimi ile psikiyatrik bozukluklar arasında güçlü bir ilişki söz konusu olup ilişkisi en fazla gösterilmiş olan psikiyatrik bozukluk depresyondur [2]. Ateşçi ve ark. [8] yaptıkları çalışmada özkıym girişiminde bulunanların yaklaşık olarak yarısında psikiyatrik bozukluk (%53,3) ve psikofarmakolojik tedavi (%48) öyküsü bulunduğunu, girişimcilerin en fazla kullandıkları yöntemin ise ilaç alımı (%65) olduğunu bildirmişlerdir. Yine aynı çalışmada özkıym girişiminde bulunan hastalarda en sık görülen psikiyatrik bozuklukların depresyon (%46.7), psikotik bozukluk (%15) ve anksiyete bozukluğu (%13.3) olduğu saptanmıştır [8]. Hastamızın özgeçmişinde depresif bozukluk öyküsü mevcuttu ve özkıym girişimlerinin tamamında yüksek doz ilaç (trisiklik antidepresan) alım yolunu kullanmıştı.

Özkıymalarda psikiyatrik bozuklukların yanı sıra bireyin kişilik özellikleri de son derece önemlidir. Özkıym girişiminde bulunan hastalar genellikle olgunlaşmamış, ben merkezci, aşırı bağımlılık gereksinimleri olan, dürtü kontrolleri zayıf bireylerdir [1, 3]. Bu özelliklerin toplandığı küme B kişilik bozukluklarında (antisosyal, borderline, histrionik ve narsistik) kendine zarar verme ya da özkıym daha sıktır [1, 3]. Borderline kişilik bozukluğu olan hastalarda tetikleyici faktörlere bağlı özkıymaların ve depresyonda kendine zarar verme davranışlarının çok fazla görüldüğü bildirilmiştir [8]. Ateşçi ve ark. [8] yaptıkları çalışmada özkıym girişimi olan hastalarda en sık borderline kişilik bozukluğu saptadıklarını ve bunu sırasıyla histrionik ve antisosyal kişilik bozukluğunun izlediğini bildirmişlerdir [8]. Şevik ve ark. [9] yaptıkları çalışmada intihar girişiminde bulunanların yaklaşık dörtte birinin daha önce de benzer girişimlerinin olduğunu bildirmişlerdir [9]. Hastamızın tıbbi hikayesinden özgeçmişinde tekrarlayan özkıym girişimlerinin olduğu ve bu girişimlerin bazı tetikleyici faktörlere bağlı olarak gerçekleştiği öğrenildi. Hasta özkıym girişimlerinin özellikle annesi ve arkadaşları gibi yakınlarıyla tartıştıktan sonra olduğunu belirtti. Hastanemize olan daha önceki iki başvurusunda da psikiyatri konsültasyonu sonucu depre-

sif bozukluk düşünülerek medikal tedavi (sertralin ve risperidon) başlanan hastanın son başvurusunda da depresif bozukluk düşünüldü. Ayrıca medikal tedavi (sertralin) başlanan hastaya kişilik bozukluğu açısından değerlendirilmek üzere ve kontrol amaçlı psikiyatri polikliniğine başvurması önerildi. Hasta yatışının beşinci gününde şifa ile taburcu edildi.

Hvid ve ark. [10] tekrarlayan özkıym girişimlerini önlemede bireylerin uzun süreli takibe alınmasının en uygun yaklaşım olduğunu bildirmişlerdir. Hastamıza her başvurusunda taburculuk sonrası psikiyatrik takip önerilmişti ve aile bireylerine özkıym eğilimi konusunda bilgilendirme yapılmıştı.

Sonuç olarak; değişen hayat koşulları nedeni ile daha sık görülmeye başlanan psikiyatrik bozukluklar özkıym girişimlerinin önemli bir etkeni olarak karşımıza çıkmaktadır. Özellikle depresif bozukluk ve borderline kişilik bozukluğu ile özkıym girişi arasında güçlü bir ilişki bulunmaktadır. Bu nedenle psikiyatrik bozuklukların tanısının konularak takip ve tedavisinin yapılması toplumun bir parçası olan bireyin yaşam kalitesine katkıda bulunabilir ve tekrarlayan özkıym girişimlerini engelleyebilir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Roy A. Psychiatric emergencies. In: Sadock BJ, Sadock VA, editors. Comprehensive Textbook of Psychiatry. 7 th ed. Baltimore: Lippincott, Williams & Wilkins; 2000. p. 2031-40.
2. Henriksson MM, Aro HM, Marttunen MJ, Heikkinen ME, Isometsä ET, Kuopasalmi KI, et al. Mental disorders and comorbidity in suicide. Am J Psychiatry 1993;150(6):935-40.
3. Siever LJ, Davis KL. A psychobiological perspective on the personality disorders. Am J Psychiatry 1991;148(12):1647-58.
4. Otal Y, Karataş AD, Baydın A, Eden AO. Ölümcül Doz Amitriptilin Zehirlenmesi: Olgu Sunumu. Fırat Tıp Dergisi 2009;14:160-162.
5. Yılmaz M. Siklik Antidepresanlar. In: Satar S, İkizceli İ, editors. Goldfrank'ın Toksikolojik Aciller El kitabı. 1th ed. Adana: Nobel Kitabevi; 2008. p. 608-14.
6. Mills KC. Cyclic antidepressants. In: Tintinalli JE, Stapczynski JS, Ma OJ, Cline DM, Cydulka RK, Meckler GD, editors. Tintinalli's Emergency Medicine A Comprehensive Study Guide. 7th ed. New York: McGraw-Hill; 2011. p. 1193-98.
7. Rosenstein DL, Nelson JC, Jacobs SC. Seizures associated with antidepressants: a review. J Clin Psychiatry 1993;54(8):289-99.
8. Ateşçi FÇ, Kuloğlu M, Tezcan E, Yıldız M. İntihar Girişimi Olan Bireylerde Birinci ve İkinci Eksen Tanıları. Klinik Psikiyatri 2002;5:22-7.
9. Şevik AE, Özcan H, Uysal E. İntihar Girişimlerinin İncelenmesi: Risk Faktörleri ve Takip. Klinik Psikiyatri 2012;15:218-25.
10. Hvid M, Vangborg K, Sørensen HJ, Nielsen IK, Stenborg JM, Wang AG. Preventing repetition of attempted suicide--II. The Amager project, a randomized controlled trial. Nord J Psychiatry 2011;65(5):292-8.

How to cite this article:

Akdemir HU, Henden P, Çolak Ş, Duran L, Katı C. Recurrent Suicide Attempt With Amitriptyline in a Patient with Depressive Mood Disorder. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 160-2.



A Case of Cardiac Arrest Due to Late Diaphragm Hernia

Geç Diyafragma Hernisi Nedeniyle Kardiyak Arrest Gelişen Olgu

Geç Diyafragma Hernisi / Late Diaphragm Hernia

Duygu Mergan İliklerden¹, Ümit İliklerden², Ufuk Çobanoğlu¹
¹Göğüs Cerrahisi, ²Genel Cerrahi AD., YYÜ Tıp Fakültesi, Van, Türkiye

Özet

Künt travmaların % 0,5-6'sında travmatik diyafragma hernileri görülür ve bu vakalarda erken tanı zordur. Travmatik diyafragma hernisi travmadan haftalar, aylar bazen de yıllar sonra semptom verip tanı alabilirler. 20 yaşında erkek hasta 8 yıl önce ağaçtan düşme öyküsü mevcut. Birkaç yıldır süren yemeklerden sonra epigastriumda ağrı tarifliyor. Hastanın son 2 haftadır yemeklerden sonra artan göğüs ağrısı, nefes darlığı şikayetleri mevcut. Hastanın çekilen PA akciğer grafisinde sol alt zonda hava sıvı seviyesi görüldü. Tetkik edilmek üzere yatırılan hastada ikinci gün ani olarak mediastinel şift ve kardiyak arrest gelişti. Anterolateral torakotomi ve manuel kalp masajı ile kardiyak resusitasyon yapıldı. Resusitasyona cevap alınan hastanın eksplorasyonunda midenin toraks içine perforate olduğu görüldü. Mide ve diyafragma primer onarıldı ve hasta postoperatif 7.günde taburcu edildi. Diyafragma rüptürlerinde travmayı takip eden erken dönemde tanı koymak zordur bu da tedavide gecikmelere neden olmaktadır. Bu makalemizde künt travmadan 8 yıl sonra tanı koyulan preoperatif mediastinel şifte bağlı kardiyak arrest gelişen olgumuzu sunmak istedik.

Anahtar Kelimeler

Diyafragma; Rüptür; Kardiyak Arrest

Abstract

Traumatic diaphragm hernias are seen in 0.5-6% of blunt traumas and early diagnosis of these cases is difficult. Traumatic diaphragm hernias can produce symptoms and be diagnosed in weeks, months, and sometimes in years. A 20-year-old male patient had a history of a fall from a tree eight years prior. He had complaints of postprandial pain in the epigastrium continuing for several years. Over the previous two weeks, the patient's complaints of chest pain and difficulty in breathing increased. On PA chest graphy, increased air fluid levels were seen in left lower zone. The patient that hospitalized for examination had a mediastinal shift suddenly and caused cardiac arrest on the second day. By performing anterolateral thoracotomy, the patient received cardiac by manual cardiac massage. Following a response to resuscitation, during exploration of the patient, it was observed that the stomach was perforated towards the thorax. The stomach and the diaphragm were primary repaired and he was discharged on the postoperative seventh day. It is difficult to diagnose diaphragm ruptures in early periods following trauma and thus causes a delay in treatment. This study presents a case that was diagnosed eight years after blunt trauma and had cardiac arrest due to mediastinal shift preoperatively.

Keywords

Diaphragm; Rupture; Cardiac Arrest

Giriş

Travmatik diyafragma hernisi; diyafragmayı etkileyen künt veya penetran torakoabdominal travmaların iyi bilinen, bununla birlikte kolaylıkla da gözden kaçabilen bir komplikasyondur [1]. Eşlik eden organ yaralanmaları nedeni ile klinik tablonun maskeleyesinden dolayı ihmal edilmesi veya atlanması mümkün olabilen yaralanmalardır [2]. Şiddetli künt travma sonrası diyafragma rüptürü %3-8 oranında bildirilmektedir [3,4]. Travmadan sonraki akut dönemde semptom, fizik ve radyolojik bulguların olmadığı durumlarda, özellikle başka organ yaralanmalarının eşlik ettiği olgularda tanı, aylar ve hatta yıllarca gecikebilir ve bu durum morbidite ve mortaliteyi artırır. Tanıda önemli nokta, künt ya da penetran travmalardan sonra diyafragmanın yaralanma olasılığının akla getirilmesidir [1,5]. Bu yazımızda, travmatik diyafragma rüptürü olan ve semptomları göğüs travmasından 8 yıl sonra başlayan hasta incelenmiştir. Preoperatif hazırlık aşamasında ani gelişen mide perforasyonu ve mediastinel şifte bağlı kardiyak arrest gelişen olgu, güncel literatür bilgileri eşliğinde sunulmuştur.

Olgu Sunumu

20 yaşında erkek hasta. Uzun süreli epigastrium ağrısı tanımlayan hastada, hiçbir tanısız tetkik yapılmadan başta antiülser tedavi olmak üzere dispeptik şikayetlere yönelik medikal tedaviler uygulanmış. Hastanın son iki haftadır şikayetleri artarak, özellikle yemeklerden sonra şiddetli göğüs ağrısı, epigastriumda ağrı ve nefes darlığı şikayetleri gelişmiş. Nefes darlığı ve göğüs ağrısı şikayetleri ile kliniğimize başvuran hastanın detaylı alınan anamnezinde; sekiz yıl önce ağaçtan düştüğü ve bir gün süreyle acil serviste müşahade edildikten sonra taburcu edildiği öğrenildi. Fizik muayenesinde oskültasyonda sol akciğer bazalde solunum sesleri azalmış olarak tespit edildi. Hastaya çekilen PA akciğer grafide sol hemitoraksta hava sıvı seviyesi tespit edildi (Resim-1). Hasta diyafragma hernisi ön tanısı ile yatırılarak preoperatif hazırlıklar yapılmaya başlandı. İkinci gün akşam yemeğinden hemen sonra şiddetli göğüs ağrısı, bulantı, karın ağrısı, nefes darlığı şikayetleri gelişti. Şikayetleri giderek artan ve genel durumu bozulan hastanın yatağında çekilen akciğer



Resim 1. Akciğer grafisinde sol hemitoraksta hava sıvı seviyesi

grafisinde mediastinel organlarının sağa doğru yer değiştirdiği, solda diyafragma kontürünün görünmediği, sol hemitorakstaki hava sıvı seviyesinin arttığı görüldü (Resim-2). Hasta acil olarak operasyona alındı. Operasyon masasına alındığı anda kardiyak arrest gelişti. İntratrakeal yolla entübe edildikten sonra sol anterolateral torakotomi yapılarak manuel olarak açık kalp masajı yapıldı. 15-20dk süreyle yapılan kardiyak resusitasyona cevap veren hastanın kalp ritmlerinin normale dönmesi üzerine; torakotomi insizyonu posteriora ve inferiora doğru genişletilerek operasyona devam edildi. Batın organları aşağı çekildiğinde midenin posteriordan perfore olduğu ve mide içeriğinin toraks içine boşaldığı tespit edildi. Perfore mide alanına barsak klempli konuldu, toraks içi serum fizyolojik ile temizlendi ve diyafragmanın sol posteriolateralde 10 cm lik lasere olduğu tespit edildi. Batın organları abdomene iletildikten sonra 0 numara prolen'ler kullanılarak diyafragma laserasyonu önce tek tek matrek, sonra kontinue sütürlerle onarıldı. Sol posterioinferor duvardaki 2 cm lik lasere alana sütür atılamadı. Hasta Laparotomi pozisyonu-

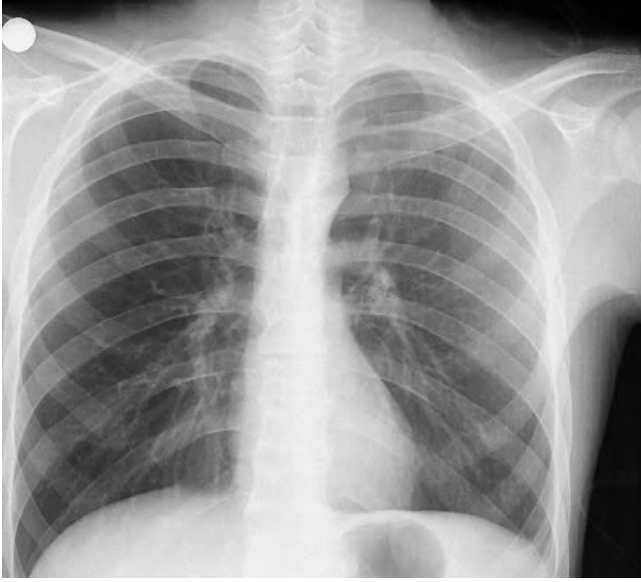


Resim 2. Mediastinel organların sağa doğru yer değiştirdiği, solda diyafragma kontürünün görünmediği, sol hemitorakstaki hava sıvı seviyesinin arttığını gösteren preoperatif akciğer grafisi

na alındı ve genel cerrahi kliniğince posteriorundan perfore olan mide primer olarak onarıldı. Diyafragma posteroinferorundaki 2 cm lik açık kalan lasere alan abdomenden 0 prolenler ile tek tek matrek ve sonra kontinue sütürlerle dikildi. Abdomen ve toraksta kanama ve hava kaçağı kontrolü sonrası toraks ve abdomene dren yerleştirilerek anatomik planda insizyonlar kapatıldı. Hasta postoperatif dönemde anestezi yoğun bakım ünitesine alındı. Birinci günde extübe edilen hasta, postoperatif 3.günde genel durumunun düzelmesi üzerine servise alındı. Takibi sürecinde komplikasyon gelişmeyen hasta postoperatif 7.günde taburcu edildi. Aylık takiplerinde patoloji tespit edilmedi (Resim-3).

Tartışma

Travmaya bağlı ölümlerin yaklaşık yarısından, göğüs travmalarının dolaylı veya dolaysız olarak sorumlu olduğu bildirilmiştir. Travma hastalarının yaklaşık %4,5-6 'sında travmatik diyafragma rüptürü görülmektedir . Diyafragma rüptürlerinin %75'i künt, %25'i ise penetran yaralanmalar sonucu oluşmaktadır [6].



Resim 3. Bir ay sonraki kontrol akciğer grafisi

Travmatik diyafragma rüptürleri (bizim olgumuzda olduğu gibi) sol diyafragmada sağ diyafragmaya göre 10 kat daha fazla görülmektedir [7]. Rüptürlerin solda daha çok olmasının nedeni diyafragmanın sol medial posterolateral tendinomüsküler alanının embriyolojik gelişmede diyafragmanın en zayıf bölgesi olmasıdır. Sağ diyafragma konjenital olarak daha güçlüdür ve karaciğerin tamponlayıcı etkisi nedeniyle travmalarda daha az yaranmaktadır [7]. Klinik serilerde künt travma sonrası sol taraf diyafragma rüptürleri daha yüksek oranda bildirildiği halde, otopsi serilerinde sağ ve sol taraf rüptürlerinin eşit oranda görüldüğü saptanmıştır [8]. Bunun nedeni sağ diyafragma rüptürlerinin genellikle major travmalar ile birlikte olması dolayısıyla mortalitesinin yüksekliğinden kaynaklanmaktadır [9].

Diyafragma abdominal ve torasik kavileri ayıran anatomik lokalizasyonu nedeniyle ve dinamik fonksiyonu nedeniyle çok nadiren tek başına yaralanabilen bir organdır. İzole travmatik diyafragma rüptürleri nadir olup genellikle ciddi multisistem yaralanmaları tabloya eşlik etmektedir [10,11]. Minör travma sonrası oluşan travmatik diyafragma rüptürleri daha da nadirdir ve genellikle tekil olgular şeklinde rapor edilmişlerdir [12,13].

Diyafragma rüptürünün; 1-Akut faz, 2-interval faz, 3-osbtrüksiyon-strangülasyon fazı olmak üzere 3 fazı vardır. Erken tanı konulamayan hastalar, kronik abdominal ve/veya göğüs semptomları veya intestinal obstrüksiyon ve strangülasyona bağlı şikayetler ile sağlık kurumlarına başvurmurlar [14]. Olgumuzda da erken dönemde tanı konulamamış olup, hasta göğüs ağrısı ve dispne şikayetleri ile başvurmuştur.

Minör yaralanma bile olsa, toraks içi negatif basınç nedeniyle diyafragmada meydana gelebilecek her türlü rüptür, sonuçta karın içi organların toraks boşluğuna herniasyonuna sebep olabilir. Solunum sırasında, abdomen ve toraks arasında 100mmHg ya ulaşan basınç farkı, abdominal organların toraksa herniasyonunu kolaylaştıran en önemli faktördür. Fıtıklaşma erken veya geç dönemde ortaya çıkabilir [15]. İntestinal strangülasyon, organ herniasyonu riskinin yüksek olması ve diyafragmanın sürekli dinamik bir organ olması nedeniyle öksürük ve buna benzer solunum hareketleri ile gerilmesi ve omental migrasyon nedeniyle diyafragma rüptürleri iyileşmesinde gecikmelere neden olması diyafragma rüptürlerinin saptandığında onarılmasını gerekti-

rir [16]. Fıtıklaşan organlar; diyafragmadaki defektin çapına ve defekte komşu olan organların özelliklerine göre değişmektedir. Diyafragmadaki defektten en sık mide, ince barsak ve kolonlar, omentum nadiren de karaciğer ve dalak fıtıklaşmaktadır. Fıtıklaşan organa ait spesifik klinik bulgular görülebileceği gibi solunum ve kardiyak bulgularda ön planda olabilir. Midenin fıtıklaştığı olgularda bulantı ve kusma belirgindir. Büyük rüptürler sonucu oluşan akut ve ciddi herniasyonlarda mediastinal shift ve kardiyak arrest gelişebilir. Geç dönemde tanı konulan diyafragma rüptürlerinde mide, ince barsak ve kolon herniasyonu, inkarserasyon ve perforasyonlar ortaya çıkabilir. Diyafragma yaralanmalarında gecikmiş tanı oranı yapılan bir çalışmada %14,6 olarak bulunmuştur. Minör travma sonrası oluşan travmatik diyafragma rüptürleri daha da nadirdir ve genellikle tekil olgular şeklinde rapor edilmişlerdir [17]. Sunulan olguda benzer şekilde fıtıklaşan mide de perforasyon ve batin içi organların basısına bağlı mediastinel shift tablosu ortaya çıkmıştır. Buna bağlı hastada kardiyak arrest gelişmiştir ve internal kalp masajı uygulanmıştır. Göğüs veya üst karın bölgesi açık ise yada göğüs deformitesi, ağır amfizem, çok sayıda kosta kırığı, kardiyak tamponat, veya penetran göğüs yaralanmaları varsa açık kalp masajı uygulanır. Transtorasik veya transabdominal yolla toraksa 4. veya 5. interkostal aralıktan girilerek kalp baş parmak ve diğer parmaklar arasında veya kalp büyükse iki el arasına alınarak ritmik olarak sıkıştırılır. Bu esnada ilaçlar ventriküle uygulanabilir. İnternal kalp masajının uygulanması esnasında oluşabilen kalp, koroner arterler, aorta, özefagus ve akciğerler gibi toraks içi organ yaralanmaları ve sağlanan hastalarda gelişen enfeksiyon en önemli komplikasyonlardandır. Sunulan olgumuzda da kardiyak arrest gelişmiş ve toraksa herniye olan batin içi organların kalp üzerine basısı ve hastanın operasyon masasında internal kalp masajına uygun koşullarda olması nedeniyle internal kalp masajı yapılması tercih edilmiştir.

Minör travma sonrası ve izole travmatik diyafragma rüptürlerinde tablo asemptomatik olduğu için bu olguların kesin tanısında güçlükler yaşanır. Bu tür yaralanmaların %12-69'unda preoperatif dönemde tanı konamamaktadır [9]. Bununla birlikte PA akciğer grafisi, travmatik diyafragma rüptürlerine bağlı herniasyonların tanısında en duyarlı ve en geçerli yöntem olarak kabul edilir ve tekrarlayan radyolojik tetkikler tanı koyma oranını daha da yükseltebilmektedir [1]. Direk grafideki radyolojik bulgular arasında; diyafragma bütünlüğünün bozulması, barsak haustralarının ve gaz gölgelerinin toraks içinde görülmesi, diyafragmanın normal anatomik pozisyonundan yüksekte izlenmesi, mediastinal kayma, atelektazi, akciğerde kitle görünümü, plevral effüzyon, pnömotoraks ve hidropnömotoraks yer alır [18]. Bizim olgumuzda da polikliniğe ilk başvurusundaki PA akciğer grafisinde sol hemitoraksta hava sıvı seviyesi tespit edildi. Şikayetleri giderek artan ve genel durumu bozulan hastanın operasyon öncesi çekilen akciğer grafisinde ise mediastinel organlarının sağa doğru yer değiştirdiği, solda diyafragma kontürünün görünmediği, sol hemitorakstaki hava sıvı seviyesinin arttığı görüldü. Travmatik diyafragma rüptürlerinin tanısında abdominal ultrasonografi, floroskopi, torako-abdominal bilgisayarlı tomografi, manyetik rezonans, dalak ve karaciğer sintigrafileri, torakoskopi ve laparoskopi gibi incelemeler gerektiğinde başvurulacak diğer tanı yöntemleri olmalıdır [18]. Olgumuzda diyafragma rüptürü şüphesiyle kliniğimize yatırılıp ileri tetkik olarak abdo-

men ultrasonografi ve toraks tomografisi planlandı fakat hastanın kliniğe yatışının 2.gününde ani olarak genel durumunun bozulması üzerine acil operasyona alındığı için ek tanı doğrulama testleri yapılmadı.

Travmatik diyafragma rüptürlerinde optimal tedavi erken tanı konan olgularda defektin onarılmasıdır. Bu dönemdeki girişimlerde yandaş organ yaralanmalarının da olabileceği düşünülerek cerrahi girişim için abdominal yol tercih edilmelidir. Bu yolla onarımın yapılamadığı durumlarda, torako-abdominal veya ayrı torakal insizyonlar gerekebilir [19]. Bizim olgumuz operasyon masasına alındığı anda kardiyak arrest geliştiği için öncelikle anterior torakotomi yapılarak manuel kalp masajı yapıldı. Yapılan kardiyak resusitasyona cevap veren hastanın kalp ritmlerinin normale dönmesi üzerine; torakotomi insizyonu posteriora ve inferiora doğru genişletilerek operasyona devam edildi. Daha sonra hasta Laparotomi pozisyonuna alındı ve posteriorundan perfore olan mide primer olarak onarıldı. Bizim de uyguladığımız gibi diyafragmanın non-absorbabl sütürlerle primer onarımı genellikle tercih edilen metoddur. Defektin büyük olması ve primer kapatmanın mümkün olmadığı durumlarda ise uygun bir greft kullanılarak defektin kapatılması önerilmektedir [19].

Hastamıza uzun yıllardır yemeklerden sonra artan epigastrik ağrı nedeniyle, tetkik edilmeden dispeptik şikayetlere yönelik medikal tedavi uygulanmış. Aynı şikayetleri nedeni ile başvurduğu polikliniğimizde çekilen PA akciğer grafisinde diyafragma hernisinden şüphelenilen ve anamnezinde travma öyküsü öğrenilerek interne edilen hastada, henüz tanı doğrulama testleri yapmaya fırsat bulunamadan ,kardiyak arreste götürecek derecede ileri boyutta mediastinel şift gelişmesi ilginçtir. Eksplo-rasyonda midenin posterior duvardan perfore olduğunun görülmesi , mide perforasyonu ile artan ağrı ve bununla ilişkili batin içi basınç artışının batin organlarını toraksa itilmesine neden olduğunu düşündürmektedir. Sonuç olarak respiratuvar ve/veya gastrointestinal yakınmalarla birlikte PA akciğer grafisinde şüpheli görünümü olan hastalarda diğer ön tanıların yanı sıra diyafragma rüptürü ve herniasyonu olasılığı akılda tutulmalı, eski veya yeni travma öyküsü ısrarla sorulmalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Shah R, Sabanathan S, Mearns AJ, Choudhury AK. Traumatic rupture of diaphragm. Ann Thorac Surg 1995; 60: 1444-9.
2. Symbas PN, Vlasos SE, Hatcher C Jr. Blunt and penetrating diaphragmatic injuries with or without herniation of organs into the chest. Ann Thorac Surg 1986;42: 158-62.
3. Maddox P, R, Mansel R, E, Butchart E. G. Traumatic rupture of the diaphragm: a difficult diagnosis. Injury 1991; 22 : 299-302.
4. Pagliarello G, Carter J. Traumatic injury to the diaphragm: timely diagnosis and treatment. J Trauma 1992; 33: 194- 7.
5. Boylu Ş, Akıncı F, Taçyıldız Hİ, Yılmaz G. İzole diyafragma yaralanmaları. Çağdaş Cerrahi Dergisi 1996; 10: 11-44.
6. Çobanoğlu U, Kara V, Yalçınkaya İ ve ark. Traumatic diaphragmatic ruptures: diagnostic and therapeutic approaches. Türk Göğüs Kalp Damar Cerrahisi Dergisi 2012;20:85-93.
7. Boulanger BR, Milzman DP, Rosati C, Rodriguez A. A comparison of right and left blunt traumatic diaphragmatic rupture.JTrauma1993;35:255-60.
8. Puffer P, Gaebler M. Traumatic diaphragmatic rupture in a forensic medicine autopsy sample. Beitr Gerichtl Med 1991;49:149-52.
9. Guth AA, Pachter HL, Kim U. Pitfalls in the diagnosis of blunt diaphragmatic injury.Am J Surg 1995; 170: 5-9.
10. Drews JA, Mercer EC, Benfield JR. Acute diaphragmatic injuries.AnnThorac Surg 1973; 16: 67-77.

11. Chen JC, Wilson SE. Diaphragmatic injuries: recognition and management in sixty-two patients.Am Surg1991;57: 810-5.
12. Brian K P Goh, Andrew S Y Wong, Khoon-Hean Tay, Michael N Y Hoe. Delayed presentation of a patient with a ruptured diaphragm complicated by gastric incarceration and perforation after apparently minor blunt trauma. Can J Emerg-Med 2004;6:277-80.
13. Sirbu H, Busch T, Spillner J, Schachtrupp A, Autschbach R. Late bilateral diaphragmatic rupture: challenging diagnostic and surgical repair. Hernia 2005;9: 90-2
14. McHugh K, Ogilvie B. C, Brunton F. J. Delayed Presentation of Traumatic Diaphragmatic Hernia. Clin Radiol 1991; 43:246-50.
15. Killeen KL, Mirvis SE, Shanmuganathan K. Helical CT of diaphragmatic rupture caused by blunt trauma. AJR 1999; 173:1611-1616.
16. Zeybek A, Kalemci S. Spontan sağ diyafragma rüptürü. CausePedia 2013; 2:545
17. Güloğlu R, Arıcı C, Kocataş A, Necefli A, Asoğlu O, Alış H ve ark. Diafragma yaralanmaları. Çağdaş Cerrahi Dergisi 1996; 10:168-171.
18. Hasdemir O, Çetinkunar S, Yalçın E, Gazioğlu D, Soylu S. Minör künt travmaya bağlı diyafram rüptürü ve herniasyon: Olgusu sunumu. ADÜ Tıp Fakültesi Dergisi 2008; 9: 31-4.
19. Sattler S, Canty TG, Mulligan MS. Chronic traumatic and congenital diaphragmatic hernias: presentation and surgical management. Can Respir J 2002;9:135-9.

How to cite this article:

İliklerden DM, İliklerden Ü, Çobanoğlu U. A Case of Cardiac Arrest Due to Late Diaphragm Hernia. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 163-6.



Phantom Extremity Pain Responding to Stellate Ganglion Blockage: Case Report

Stellat Ganglion Blokajına Yanıt Veren Fantom Ekstremité Ağrısı: Olgu Sunumu

Fantom Ekstremité Ağrısı / Phantom Extremity Pain

Edip Gönüllü¹, Yüksel Erkin², AydınTaşdöğen², Hayriye Gönüllü³, Lokman Soyorol¹

¹Van Region Training and Research Hospital, Algology, Van,

²Dokuz Eylül University, School of Medicine, Department of Algology, İzmir,

³Yüzüncü Yıl University, School of Medicine, Department of Emergency Medicine, Van, Turkey

Bu çalışma TARK 2012 46.Ulusal kongresinde 7-11 Kasım tarihinde poster olarak sunulmuştur.

Özet

Amputasyondan sonra var olmayan ekstremitede hissedilmeye devam eden ağrıya fantom ekstremité ağrısı denir. Fantom ekstremité ağrısının patofizyolojik mekanizması ve etiyolojisi kesin bilinmemekle birlikte hastaları fiziksel ve psikososyal yönlerden etkilemektedir. Bu yazıda medikal tedaviye yanıt vermeyen ve lidokain, bupivakain ve fentanil uygulanarak stellat ganglion blokajı yapılan ve ağrı şikayetlerinde gerileme gözlenen bir olgunun sunulması amaçlanmıştır.

Anahtar Kelimeler

Fantom Ekstremité Ağrısı; Stellat Ganglion; Sinir Blokajı

Abstract

Phantom extremity pain is that which continues to be felt in a non-existent extremity after amputation. The pathophysiological mechanism and etiology of phantom extremity pain are not exactly known, Phantom extremity pain affects the patients in physical and psycho-social aspects. This paper presents a patient with phantom extremity pain that had not responded to medical treatment. A stellate ganglion blockage was performed using lidocaine, bupivacaine and fentanyl and the patient's pain was observed to be reduced.

Keywords

Phantom Extremity Pain; Stellate Ganglion; Nerve Blockage

DOI: 10.4328/JCAM.2085

Received: 08.10.2013 Accepted: 09.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 167-8

Corresponding Author: Edip Gönüllü, Van Region Training and Research Hospital, Algology, Van, Turkey.

T.: +905057672488 E-Mail: edipgonullu@gmail.com

Introduction

The pain defined as the actual or potential tissue damage or resulting in similar situations and sensory experience an unpleasant sensation by International Association for the Study of Pain [1]

Phantom extremity pain (PEP) is that continues to be felt in non-existent extremity after amputation. This condition, first described by French surgeon Ambros Pare in the 16th century, can be seen in 50-80 % of patients following the amputation of a limb [2, 3]. The pathophysiological mechanism and the etiology of the PEP are not exactly known, PEP affects the patients in both physical and psycho-social aspects.

This study presents a patient with PEP on which a stellate ganglion blockage was performed using lidocaine, bupivacaine and fentanyl.

Case Report

Following a severe injury cause by an electric shock which occurred 20 years earlier the arm of a 52 year-old male was amputated to the distal portion. He presented to our algology department in May 2011. The initial examination showed that the patient had no other diseases or medical conditions. His physical and neurologic signs were normal. The patient explained that he had five surgical procedures as a pain palliative and he had taken carbamazepine for a while but this had had reduced the pain. The patient's Visual Analog Scale (VAS) was about 9-10 out of 10 and he was taking nonsteroid anti-inflammatory medication. The patient was hospitalized for pain palliation and pregabalin and tramadole were administered. Since the patient's pain did not decrease a stellate ganglion blockage was performed by applying 2 ml 2 % lidocaine + 25 mcg fentanyl + 2 ml from 0.5 % isotonic bupivacaine to form a sympathetic blockage with anterior paratrachial approach. This process was carried out ten times every other day. On the third week of hospitalization the patient whose VAS was 0-3 was discharged with 600 mg/day pregabalin, 200 mg/day tramadole medical treatment. In the follow-up control one year after discharge from hospital, it was found that his VAS had been over 5 and during this period he had been diagnosed with major depression by our psychiatry department and he had been prescribed antidepressant medication. Stellate ganglion blockage was again performed and the patient's VAS decreased to 1-3. The patient is still being followed up at our polyclinic.

Discussion

Although post-amputation PEP is a common condition, there is still no special treatment program for clinicians to guide them in the treatment of PEP. Most of the pharmacological treatments have limited benefits and only a few have evidence-based effectiveness and reliability [4].

Opioids, tramadole, tricyclic antidepressant drugs, ketamine and sodium channel blockers are used for pharmacological treatment. In addition to neurectomy in patients who develop neurinoma there are other surgical invasive procedures such as nerve block, rhizotomy, spinal cord stimulation, deep brain stimulation and cortical stimulation. Furthermore, there are other treatment option such as mirror therapy, transcutaneous nerve stimulation and cognitive behaviorist pain treatment [5].

Peripheral and central neural mechanisms are proposed as one explanation of the formational mechanism of PEP. However, there are also multiple mechanisms including psychiatric disorders that are often considered to be responsible for the existence of PEP.

In neurinoma which are formed in nerve endings of the amputation stumps, expressions in sodium channels was said to increase and cause hyperexcitability and forming spontaneous bursting by Dickinson, and et al. [6].

In recent years, the sensitizing of the spinal cord and cortical reorganization have been the most commonly stated mechanism that explains the formational mechanism of PEP. During the reorganization, in cortical areas relating to the amputated extremity, the surrounding areas continue to exist in the primary somatosensory and motor cortex. Afferents of the neurons around stump can be considered to be partly responsible for cortical reorganization [7].

Although in literature there is no evidence that supports the forming of PEP psychogenic mechanisms, there are some opinions that anxiety and depression can increase PEP [8].

This paper presents a case of PEP that did not respond to pharmacological treatment, but the patient's pain decreased after the application stellate ganglion blockage PEP. However, it was found that after a diagnosis of depression the PEP returned.

Since the patient was without pain for a period after the initial stellate ganglion blockage and again after the second intervention, we are of the opinion that this condition results from very complex mechanisms can be treated temporarily and this state of being well can be sustained with the help of periodic sympathetic blockage.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Yetim M. Pain Management After thoracotomy (In Press). JCAM.97-100.
2. Kooijman CM, Dijkstra PU, Geertzen JH, Elzinga A, van der Schans CP. Phantom pain and phantom sensations in upper limb amputees: an epidemiological study. *Pain*. 2000; 87(1): 33-41.
3. Flor H. Phantom-limb pain: characteristics, causes, and treatment. *Lancet Neurol*. 2002; 1(3):182-9.
4. Fang J, Lian YH, Xie KJ, Cai SN. Pharmacological interventions for phantom limb pain. *Chin Med J (Engl)*. 2013; 126 (3): 542-9.
5. Brainin M, Barnes M, Baron JC, Gilhus NE, Hughes R, Selmaj K, Waldemar G; Guideline Standards Subcommittee of the EFNS Scientific Committee. Guidance for the preparation of neurological management guidelines by EFNS scientific task forces-revised recommendations 2004. *Eur J Neurol*. 2004; 11 (9): 577-81.
6. Dickinson BD, Head CA, Gitlow S, Osbahr AJ 3rd. Maldynia: pathophysiology and management of neuropathic and maladaptive pain--a report of the AMA Council on Science and Public Health. *Pain Med*. 2010;11(11):1635-53. *Pain Med*. 2011 12(4): 682(Comment on).
7. Weeks SR, Anderson-Barnes VC, Tsao JW. Phantom limb pain: theories and therapies. *Neurologist*. 2010; 16(5): 277-86.
8. Berger IH, Bacon DR. Historical notes on amputation and phantom limb pain: All Quiet on the Western Front? *Gundersen Lutheran Medical Journal*. 2009; 1(6): 26-9.

How to cite this article:

Gönüllü E, Erkin Y, Taşdoğan A, Gönüllü H, Soyoral L. Phantom Extremity Pain Responding to Stellate Ganglion Blockage: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(supl 2): 167-8.



Nevoid Melanoma: A Case Report

Nevoid Melanom: Olgu Sunumu

Nevoid Melanom / Nevoid Melanoma

Esra Karakuş¹, Özgür Ekinci², Özlem Erdem², Ömer Uluoğlu²

¹Ankara Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Hematoloji Onkoloji Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Uzmanı,

²Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Ana Bilim Dalı, Ankara, Türkiye

20. Ulusal Patoloji Kongresi 29 Eylül - 3 Ekim 2010 Eskişehir, Türkiye

Özet

Nevoid melanom malign melanomun ender bir subtipidir. Rutin pratikte sık görülen benign melanositik nevüslerle karışarak tanısız zorluğa neden olabilir. 40 yaşında erkek hastadan sol nazolabial bölgeden kozmetik amaçlı alınan yüzeysel nevüs eksizyonu, histopatolojik ve immunhistokimyasal incelemeler sonucunda nevoid melanom tanısı almıştır. Melanomların az görülen bir subtipi olması ve böyle olguların değerlendirilmesinde patolojik incelemenin kritik olması nedeniyle sunulmuştur. Nevoid melanomun malign melanom ve benign melanositik lezyonlarla ayırıcı tanısı yanı sıra, nevoid melanomun tanınmasının önemi vurgulanmıştır.

Anahtar Kelimeler

Deri Kanseri; Malign Melanom; İntradermal Nevüs

Abstract

Nevoid melanoma is a rare subtype of malignant melanoma. It may resemble benign melanocytic nevi which are encountered frequently in routine practice and lead to a diagnostic challenge. Here, a 40 years-old male patient is presented. Biopsy specimen excised from the left nasolabial region for cosmetic reasons was diagnosed as nevoid melanoma after histomorphological and immunohistochemical examinations. Because of its rare occurrence and the critical role of pathologic examination in evaluating such patients, we found it worth this case to be presented. In this report, the histopathological differentiation of nevoid melanoma from benign melanocytic lesions and the importance of its recognition are emphasized.

Keywords

Cancer of Skin; Malignant Melanoma; Nevus Intradermal

DOI: 10.4328/JCAM.2007

Received: 08.08.2013 Accepted: 12.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 169-71

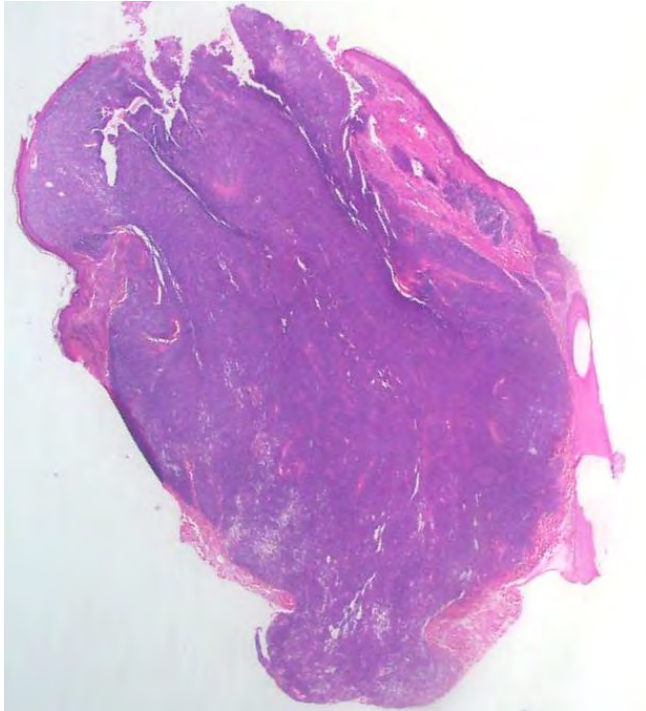
Corresponding Author: Esra Karakuş, Ankara Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Hematoloji Onkoloji Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Uzmanı, Ziraat Mah. İrfan Baştuğ Cad. Kurtdereli Sk. No:10 Dışkapı, Ankara, Türkiye. T.: +90 3125969746 GSM: +905054524946 F.: +90 3123472330 E-Mail: esrakaraku@gmail.com

Giriş

Nevoid melanom tüm melanomlar içinde nadir görülen suptiplerden biri olup, tüm melanomların %1-2'sini oluşturur [1]. Histopatolojik olarak benign melanositik lezyonlarla karışabilmesi nedeni ile histopatolojik olarak meme biyopsilerinden sonra en sık yalancı negatiflik oranına sahiptir. Literatürde nevoid melanomların benign melanositik lezyon tanısı alma oranı %20-30 olarak bildirilmektedir [2]. Biyolojik davranışı diğer konvansiyonel malign melanomlarla aynıdır. Histopatolojik olarak benign melanositik lezyonlara benzerliği, rekürrens ve metastaz potansiyeli olan bu tümörün tanınmasını önemli kılar [3].

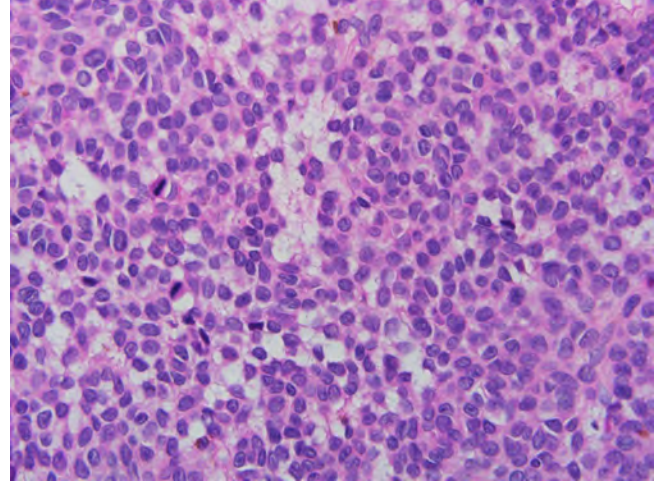
Olgu Sunumu

Kırk yaşındaki erkek hasta, yaklaşık bir yıldır olan, sol nazolabial bölgedeki melanositik lezyon nedeniyle plastik cerrahi kliniğine başvurmuştur. Klinik olarak lezyonda tıraş esnasında travmaya bağlı kanama dışında, büyüme yada renk değişikliği görülmemiştir. Olgunun özgeçmişinde ve soygeçmişinde displastik nevüs ve/veya malign melanom öyküsü yoktur. Kozmetik nedenlerle eksizye edilen lezyon makroskopik olarak 0,9 cm çapta nodüler, homojen, kahverengi, sınırları düzgün, deri-deri altı doku şeklinde değerlendirilmiştir. Mikroskopik incelemede dermis ve subkutan dokuda lokalize, büyük oranda diffüz gelişim gösteren, yer yer adalar oluşturan, melanositik lezyon izlenmiştir (Resim 1). Melanositik hücreler orta- büyük boyutlarda olup orta düzeyde atipi ve makronükleol içermektedir. Maturasyon kaybı mevcuttur. Milimetrekarede dokuz adet mitotik figür izlenmiştir (Resim 2). Dermal komponente eşlik eden intraepidermal komponent mevcut değildir. Breslow'a göre tümör kalınlığı altı milimetre ve Clark Level IV olarak saptanmıştır. Eşlik eden melanositik lezyon gözlenmemiştir. Ülserasyon, regresyon ve lenfositik infiltrasyon mevcut değildir. Anjiolenfatik invazyon ve perinöral invazyon saptanmamıştır. İmmunhistokimyasal çalışmada HMB45, S100 ve Melan-A pozitif izlenmiş ve Ki-67 proliferasyon indeksi %5-10 olarak bulunmuştur (Resim

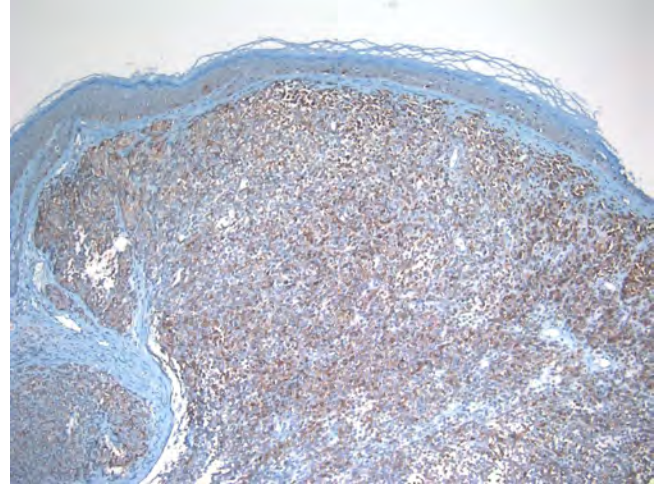


Resim 1. Dermis ve subkutan dokuda lokalize, büyük oranda diffüz gelişim gösteren melanositik lezyon (H&E)

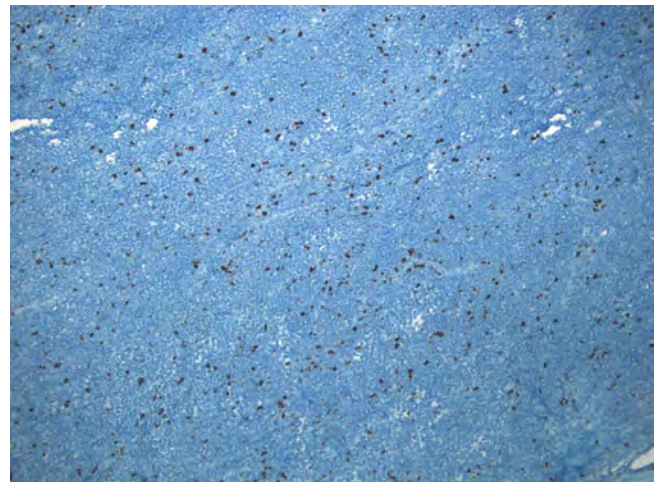
3, 4). Tümörün taban cerrahi sınırında devamlılığı nedeniyle reeksizyon yapılmıştır. Reeksizyonda aynı morfolojiyi gösteren ve subkutan dokuya kadar devam eden tümöral lezyon izlenmiştir. Tümöre komşu bir odakta bir milimetre çapında benign intra-dermal melanositik nevüs izlenmiştir. Tümörün yaygınlığını değerlendirmek için yapılan laboratuvar testleri, akciğer grafisi ve PET-CT'de yayılım saptanmamıştır.



Resim 2. Melanositik hücreler orta düzeyde atipi ve makronükleol içermektedir ve zeminde mitotik figürler gözlenmektedir (H&E, X400)



Resim 3. İmmunhistokimyasal çalışmada HMB45 pozitifliği (İmmünoperoksidaz X200)



Resim 4. İmmunhistokimyasal çalışmada Ki67 proliferasyon indeksi %5-10'dur. (İmmünoperoksidaz X100)

Tartışma

Nevoid melanom ilk olarak 1980 yılında Levene tarafından "psödonevüs ve verrüköz melanom" olarak tanımlanmıştır. Daha sonra minimal sapma gösteren melanom olarak adlandırılmıştır [3]. Nevoid melanom ismini ilk kullanan ise Schmoeckel'dir [4,5]. Her ne kadar isimlendirmesi iyi prognozu düşündürmekle birlikte Zembowicz 'in 20 vakalık, McNutt'un 16 vakalık ve Schmoeckel'in 33 vakalık serilerinde konvansiyonel melanomlarla nevoid melanom arasında prognoz farklılığı bulunmamıştır [1]. Zembowicz'in serisinde lokal rekürrens %50 olarak bildirilmektedir.

Tümör genç erişkin kadınlarda, sıklıkla gövde ve ekstremitelerde özellikle bacak ve kollarda yerleşim göstermektedir [1,4,5]. Makroskopik olarak 5-10mm boyutlarında, papüller, nodüler veya verrüköz görünümündedir. Renkleri uniform veya irregüler, ten renginden koyu kahverengiye değişebilir. Nodüler melanomlar gibi düzgün sınırlıdır [1,4]. Lezyon simetrik ve iyi sınırlı olup; verrüköz varyantta epidermis normal veya akantotik olabilir. Dermoe-pidermal bileşkede melanositik proliferasyon lentiginöz patternde olabileceği gibi yuva yapılarında izlenebilir. Papiller dermiste diffüz, geniş tabakalar halinde küçük epitelioid nevüs hücreleri mevcuttur. Lezyonun alt tabakalarında hücrelerin uniform ve monoton olması; göreceli olarak sellülerite ve hücre nükleuslarının azaldığı, maturasyonun olduğu izlenimini verebilir [4,6,7].

Tümörü oluşturan hücreler tip A hücrelerinden oluşan tipik bir nevüste olduğu gibi kuboidal, poligonal, belirgin sitoplazmalı, veziküler nükleuslu, belirgin nükleollü olabileceği gibi Tip B hücreleri gibi bazofilik, dar sitoplazmalı, hiperkromatik nükleuslu olabilir. Küçük büyümekte derin dermiste dermal kollajeni parçalayan tek tek hücreler şeklinde, küçük yuvalar şeklinde veya tabakalar halinde infiltrasyon paterni görülebilir. Diğer melanositik proliferasyonlar eşlik edebilir [1,4,8]. Benign nevüsten ayıran en önemli özelliği özellikle lezyonun alt tabakalarında çok sayıda mitozdur izlenmesidir [4].

İmmunhistokimyasal olarak HMB45 ile melanomlarda değişen derecelerde epidermal ve dermal komponentde yama tarzında irregüler boyanma izlenir. Benign nevüslerde HMB45 ekspresyonu dermoepidermal bileşke ve yüzeysel dermisdeki melanositlerle sınırlı olup derin tabakalarda matürasyon nedeni ile beklenmez. Ki-67 indeksi melanomlarda yüksektir [3,9]. Literatürde çeşitli araştırmalarda Cyclin- D1, p16, WT1, leptin ve metallothionein gibi immünhistokimyasal belirleyicilerin melanositik lezyonlarda maturasyonu değerlendirmede ve lezyonun biyolojik davranışını belirlemede yardımcı olabileceği bildirilmektedir [3].

Nevoid melanomların histopatolojik ayırıcı tanısında konjenital nevüs, küçük hücreli melanom, derin penetrasyon gösteren nevüs, spitzoid melanom, metastatik melanom ve desmoplastik/nörotropik melanomlar yer almaktadır [1,4,9,10]. Nevoid melanomların kollajen fibrillerini ayırarak tabakalar halinde itici tarzda infiltrasyon oluşturmaları, lezyonun derin tabakalarında melanin pigmenti ve mitoz görülmesi, hücre membranlarının kalın, katlanmış ve irregüler görünümü konjenital nevüsten ayırıcı özelliklerdir. Nükleol belirginliği yanı sıra follikülerinde ve ekrin glandlarda infiltrasyona bağlı elongasyon ve distorsiyon nevoid melanomlarda görülen diğer özelliklerdendir [9,11].

Spitzoid melanomlar bileşke komponent içermeleri ve büyük atipik melanositlerle karakterli pajetoid yayılım göstermeleri ile nevoid melanomdan ayrılır. Metastatik melanomlar intraepider-

mal komponent içermemeleri yanı sıra düzgün ve simetrik konfigürasyon gösterirler. Dermal komponentde mitoz görülebilir. Ayırıcı tanıda en önemli özellik hastanın melanom öyküsü olup olmadığıdır [1,9].

Schmoeckel, McNutt, Zembowicz, Wong ve Lohmann yaptıkları çalışmalarda prognoz tümör derinliğine, mitoz sayısına ve büyük hücre tipi varlığına bağlı olduğunu göstermişlerdir [1].

Sonuç olarak nadir olarak görülen nevoid melanom patolojik değerlendirilmede tanısız açıdan zorluklar ve ayırıcı tanı güçlüğü yaratmaktadır. Rutin pratikte sıklıkla görülen benign melanositik lezyonların sitolojik atipi, maturasyon ve mitotik aktivite açısından dikkatle incelenmesi gerektiği unutulmamalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. LeBoit P.E., Burg G., Weedon D., Sarasin A. World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and Genetics of Skin Tumours. Lyon 2006.p.86-90.
2. Wong TY, Duncan LM, Mihm MC Jr. Melanoma mimicking dermal and Spitz's nevus ("nevroid" melanoma). Semin Surg Oncol 1993;9(3):188-93.
3. Diwan AH, Lazar AJ. Nevroid melanoma. Clin Lab Med 2011;31(2):243-53.
4. Zembowicz A, McCusker M, Chiarelli C, et al. Morphological analysis of nevroid melanoma: a study of 20 cases with a review of the literature. Am J Dermatopathol 2001;23(3):167-75.
5. Wick MR, Patterson JW. Cutaneous melanocytic lesions: selected problem areas. Am J Clin Pathol 2005;124:52-83.
6. Buljan M, Situm M, Tomas D, et al. A case report of an unrecognized nevroid melanoma in a young woman--clinicopathological diagnostic challenge. Coll Antropol 2010;34(2):307-11.
7. DiCauda DJ, McCalmont TH, Wick MR. Selected diagnostic problems in neoplastic dermatopathology. Arch Pathol Lab Med 2007;131(3):434-39.
8. Magro CM, Crowson AN, Mihm MC. Unusual variants of malignant melanoma. Mod Pathol 2006;19(2):41-70.
9. Massi G. Melanocytic nevi simulant of melanoma with medicolegal relevance. Virchows Arch 2007;451(3):623-47.
10. McNutt NS. "Triggered trap": nevroid malignant melanoma. Semin Diagn Pathol 1998;15(3):203-209.
11. Ruiter DJ, van Dijk MC, Ferrier CM. Current diagnostic problems in melanoma pathology. Semin Cutan Med Surg 2003;22(1):33-41.

How to cite this article:

Karakuş E, Ekinci Ö, Erdem Ö, Uluoğlu Ö. Nevroid Melanoma: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 169-71.



Endoscopic Removal of the Tooth Brush Which Was Impacted in Stomach: Case Report

Mideye İmpakte Olmuş Diş Fırçasının Endoskopik Olarak Çıkartılması: Olgu Sunumu

Yabancı Cisim Yutulması / Swallowed Foreign Body

Fevzi Cengiz¹, Erkan Oymacı², Baha Zengel¹, Nazif Erkan¹, Mehmet Yıldırım¹
¹Genel Cerrahi Bölümü, ²Gastroenteroloji Cerrahi Bölümü,
İzmir Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İzmir, Türkiye

Bu çalışma Ekim 2013 Bodrum – Muğla 11. Ulusal Endoskopik Laparoskopik Cerrahi Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur.

Özet

Özet: Kaza ile yutulan uzun, rijit ve keskin yabancı cisimler gastrointestinal sistemde impakte olarak, perforasyon veya tıkanma gibi komplikasyonlara neden olabilmektedir. Nadiren izlenen bu olgularda madde bağımlılığı, şizofreni veya anoreksiya gibi ciddi sağlık problemleri sorgulanmalıdır. Bu tarz cisimlerin cerrahi veya endoskopik olarak en kısa sürede çıkartılması gereklidir. 23 yaşında erkek hasta acil servise diş fırçası yutma yakınması ile başvurmuştur. Yazımızda kaza ile yutulan diş fırçasının, altı saat sonra impakte olduğu mideden sedoanaljezi altında endoskopik yöntem ile çıkarılması sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Endoskopi; Diş Fırçası; Araştırma; Tedavi

Abstract

Long, rigid and sharp foreign objects which are swallowed by accident can be impacted in gastrointestinal system causing complications like obstruction or perforation. Serious health problems like anorexia or schizophrenia should be considered in those cases which are seen rarely. The foreign objects which were impacted in gastrointestinal system must be removed immediately either surgically or endoscopically. 23 year old male patient arrived at emergency with the complaint of swallowing a toothbrush. In this report we present endoscopic removal of a tooth brush under sedation and using analgesics six hours after it was swallowed accidentally and impacted in stomach

Keywords

Endoscopy; Toothbrush; Investigation; Management

DOI: 10.4328/JCAM.2113

Received: 24.10.2013

Accepted: 12.11.2013

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 172-4

Corresponding Author: Erkan Oymacı, Çankaya Mah. 131 Sok. No:61 Kat:1 İzmir, 35280, Türkiye.

T.: +905052692741 F.: +90 2322614444 E-Mail: erkan.oymaci@hotmail.com

Introduction

Esophageal foreign body impaction often requires urgent evaluation and treatment and the majority of patients presented to the emergency department [1]. The difficult points in endoscopic management were perforating esophageal foreign bodies, impacted esophageal foreign bodies with sharp points, and those with impaction for more than 24 hours [2]. Swallowed foreign objects like toothpicks, meat or fish bones, screws, coin, metal clips, teeth, dentures and spoon handle were reported [3, 4]. Etiological factors are curiosity in children, loss in visual accuracy, mental illness, alcohol and drug addiction, dentures and eating too fast in adults [3, 5]. Even if the swallowed foreign objects pass through the alimentation tract without any problems and without morbidity, outpatient follow up is needed. Long, rigid and sharp foreign objects have high risk of causing complications at the sharp angled points of gastrointestinal system. In those cases the foreign object must immediately be removed endoscopically or surgically. Our report presents the case of endoscopic removal of an 19 cm toothbrush successfully which was swallowed accidentally.

Case Report

23 year old male patient arrived at emergency with the complaint of swallowing a toothbrush. The patient told that he swallowed the toothbrush accidentally while brushing his teeth and no alcohol or drug use were present. There is no history of medical problems like psychiatric illness, mental retardation and alcoholism or drug addiction during psychiatric consultation. Results of the physical examination of the patient were normal. Laboratory results revealed that glucose was 103 mg/dl, hemoglobin level was 13.4 gr/dL, hematocrit level was 40.9, white blood cell was $5.0 \times 10^9/L$ and amylase level was 124 u/L. Typical shape of toothbrush was clearly visualized in standing posture plain abdominal x-ray (Figure 1). Upon the arrival of the patient, we performed endoscopic intervention by applying local anesthetics on oropharyngeal mucosa in addition to sedatives and analgesics administration. Since the stomach was full clear visualization was not possible and the operation ended without taking the toothbrush out. After six hours of fasting endoscopic intervention was repeated by an experienced endoscopic surgical team using local anesthetics under sedation and administering analgesics. During the endoscopic procedure we observed that the brush part of the toothbrush entered the pyloric hole and the grip was impacted in corpus of the stomach (Figure 2). Since both ends of the toothbrush were not reachable, the tip of the endoscope was passed through the two fixed points of toothbrush in retroflexed position, and then the grip of the toothbrush was released by using the tip of the endoscope making it recognizable at cardioesophageal level (Figure 3). The toothbrush which was hold by its grip with the help of snare was pulled back by endoscope and is taken out successfully. The procedure ended after endoscopically controlling esophagus, stomach and duodenum for any possible damage. The removed toothbrush was 19cm long (Figure 4). The patient was discharged after two hours of observation in good physical condition and without any complications.

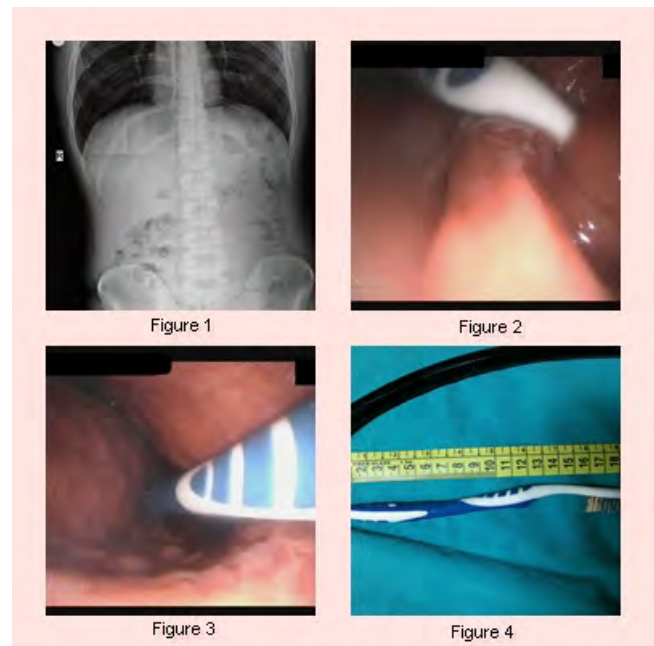


Figure 1. Plain X-ray of chest and abdomen six hours later.

Figure 2. The endoscopic view of the impacted toothbrush location in the stomach after six hours.

Figure 3. Liberalized toothbrush after maneuvering with the shaft of endoscope.

Figure 4. Outside view and the measurement of the removed toothbrush.

Discussion

Swallowing foreign objects is a frequently seen case in emergency departments. Swallowed objects rarely cause impaction, perforation or obstruction in gastrointestinal system. The difficult points in endoscopic management were perforating esophageal foreign bodies, impacted esophageal foreign bodies with sharp points, and those with impaction for more than 24 hours. Impacted esophageal foreign bodies should be treated as early as possible, and their endoscopic management is safe and effective [2]. Inflammation, abscess, peritonitis, obstruction, fistula, mortality and morbidity as a result of hemorrhage may occur in relation to the shape of the swallowed object. In addition to those, on rare occasions migration of the foreign objects to the neighboring organs is seen [3, 5, 6].

Swallowed tooth brush is a rare occasion and 34 cases have been reported in the literature till today. As in our case, lack of additional health problems of the patient, early diagnosis and intervention, endoscopically removal of toothbrush is possible without facing any potential complications. However, in some cases problems like mental retardation, schizophrenia and anorexia among young women cause delays in diagnosis and lead to complications and as a result surgical intervention may be needed [5, 7]. Since duodenum is fixed to retro peritoneum and anatomically shaped as C-loop, it is a trap for long and sharp objects. In our case, although the stomach is emptied after 6 hours, it was found that brush part of the toothbrush was impacted to stomach by attaching to pylori without reaching to the intestines. It is obvious that the objects which impacted to this area will cause pressure necrosis and then perforation, fistula or abscess. Therefore, removing the large gastric foreign objects longer than 6 cm without waiting for a long time is suggested [3]. There is no reported case of swallowing toothbrush in the literature which passes through gastrointestinal system spontaneously. For this reason, efforts should be made

without delay for removing long, rigid and sharp objects from gastrointestinal system. Endoscopic removal of the toothbrush for the first time was carried out by Ertan et al. in 1983 [8]. To be able to complete the endoscopic procedure successfully it is needed to determine the right time, strategy and an experienced team should be recruited. There are unsuccessful endoscopic procedures due to the size and shape of the toothbrush [9]. If the toothbrush has become impacted upside down in the esophagus, it is wise to push the toothbrush into the stomach first, and pull it out with a snare after correcting the direction of toothbrush [10]. It would be more difficult to bend the handle of toothbrush than to bend the head of toothbrush. Also esophagus complications have been reported during extraction of the foreign objects [4]. Therefore during extraction, it is important that the longitudinal axis of toothbrush is parallel to the esophagus. While pulling the object out extreme care should be taken passing gastroesophageal junction, otherwise, mucosal damage or penetration injury can occur. As foreign object reaches the oropharynx, maneuver in this area is the second most important stage of the procedure. Taking the patient's head to extension position, toothbrush must be pulled out by reaching with endoscopist's hand to avoid injury at oropharynx. In our case, at this stage by taking the patient's head to extension position, removing procedure was carried out without any need for manual maneuver. The shape of foreign object and the medical status of the patient will specify the type of intervention and the follow-up procedure.

As a result, removing of large, rigid and sharp objects from the gastrointestinal system within the shortest time, without causing morbidity and mortality is essential. While removing these kind of objects without the need for surgery, proper execution of the procedures by a team who are experienced in endoscopic intervention increases the chances of success.

Competing Interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Crockett SD, Sperry SLW, Mille CB, Shaheen NJ, Dellon ES. Emergency care of esophageal foreign body impactions: timing, treatment modalities, and resource utilization. *Diseases of the Esophagus* 2013;26:105–112.
2. Chen T, Wu HF, Shi Q, Zhou PH, Chen SY, Xu MD et al. Endoscopic management of impacted esophageal foreign bodies. *Diseases of the Esophagus* 2012 Sep 13. doi: 10.1111/j.1442-2050.2012.01401.
3. Chao HH, Chao TC. Perforation of the duodenum by an ingested toothbrush. *World J Gastroenterol* 2008;14:4410-2.
4. Mosca S, Manes G, Martino R, Amitrano L, Bottino V, Bove A et al. Endoscopic management of foreign bodies in the upper gastrointestinal tract: report on a series of 414 adult patients. *Endoscopy* 2001;33:692–696.
5. Lee MR, Hwang Y, Kim JH. A case of colohepatic penetration by a swallowed toothbrush. *World J Gastroenterol* 2006;12:2464-5.
6. Eisen GM, Baron TH, Dominitz JA, Faigel DO, Goldstein JL, Johanson JF et al. Guideline for the management of ingested foreign bodies. *Gastrointest Endosc* 2002;55:802–806.
7. Faust J, Schreiner O. A swallowed toothbrush. *Lancet* 2001;357:1012.
8. Ertan A, Kedia SM, Agrawal NM, Akdamar K. Endoscopic removal of a toothbrush. *Gastrointest Endosc* 1983;29:144-145.
9. Wishner JD, Rogers AM. Laparoscopic removal of a swallowed toothbrush. *Surg Endosc* 1997;11:472-3.
10. Lu XL, Cao HL, Qian KD. Endoscopic removal of an accidentally swallowed toothbrush. *Inter Med* 2008;47:1797-1798.

How to cite this article:

Cengiz F, Oymacı E, Zengel B, Erkan N, Yıldırım M. Endoscopic Removal of the Tooth Brush Which Was Impacted in Stomach: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 172-4.



Giant Mediastinal Teratoma

Dev Mediastinal Teratom

Mediastinal Teratom / Mediastinal Teratoma

İlkay Albayrak¹, Taner Tarladaçalışır¹, Selçuk Köse², Sedat Koçal³

¹Edirne Devlet Hastanesi Göğüs Cerrahisi Kliniği, Edirne,

²Bakırköy Dr. Sadi Konuk Eğitim Araştırma Hastanesi Göğüs Cerrahisi Kliniği, İstanbul,

³Hatay Mustafa Kemal Üniversitesi Tıp Fakültesi Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı, Hatay, Türkiye

Özet

Mediastinal germ hücreli tümörlerin büyük çoğunluğunu teratomlar oluşturur. Matür ve immatür teratomların tedavisinde esas amaç kitlenin tamamen çıkarılmasıdır. Bununla birlikte, kitlenin komşuluğundaki hayati yapılar, rezeksiyonu güçleştirir. Bu durumda subtotal rezeksiyon yapılabilir. Rekürrens nadirdir ve genellikle prognoz çok iyidir. Bu yazıda perikarda fiks olması dolayısıyla subtotal rezeksiyonu yapılan mediastinal dev matür kistik teratom olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Teratom; Mediasten; Subtotal Rezeksiyon

Abstract

The most of mediastinal germ cell tumors are teratomas. The main purpose of the treatment of immature and mature teratomas is completely resection of the mass. However, surgical problems may be occur due to proximity with vital structures. In this case, subtotal resection can be performed. Recurrence is rare, and the prognosis is usually very good. In this report, a case of the giant mediastinal mature cystic teratoma that applied subtotal resection due to pericardial adhesions is presented.

Keywords

Teratoma; Mediastinum; Subtotal Resection

DOI: 10.4328/JCAM.2118

Received: 25.10.2013 Accepted: 12.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 175-7

Corresponding Author: Taner Tarladaçalışır, Edirne Devlet Hastanesi Sarıcapaşa Mahallesi, Çukur Çeşme Sokak, No: 4-6 Ayşekadın, 22020, Edirne, Türkiye.

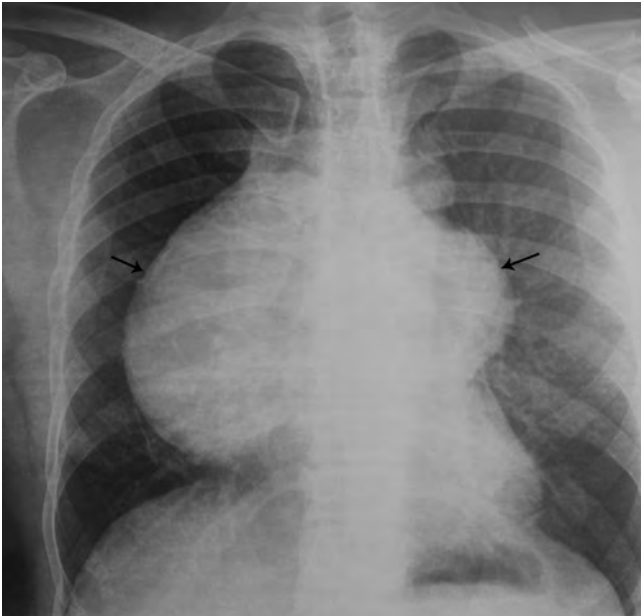
T.: +90 2842145516 (Santral) - 1309 (Dahili) GSM: +905325239968 E-Mail: tanertarladaçalışır@yahoo.com

Giriş

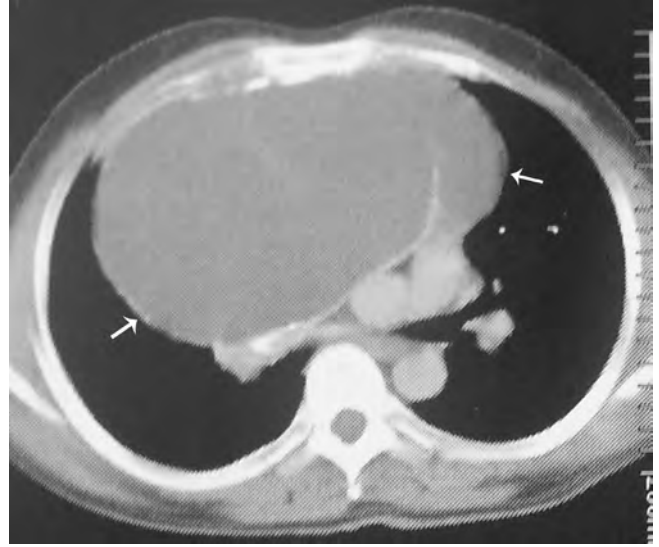
Teratomlar multipotansiyel embriyolojik hücrelerden köken alan germ hücreli tümörlerdir. Toraks içerisinde ön mediastende yerleşimi sık görülmekle birlikte mediasteninin diğer kompartmanları ve parankim içerisinde de görülebilirler. Genellikle başka bir sebeple çekilen direkt grafide, rastlantısal olarak tespit edilirler [1,2]. Mediastinal teratomların küratif tedavisi cerrahi eksizyondur, ancak matür teratomlarda kitlenin lokalizasyonu ve etraf dokularla ilişkisi total eksizyona izin vermiyor ise subtotal rezeksiyon ile başarılı bir tedavi sağlanabilir [3]. Bu yazıda subtotal rezeksiyon yapılan dev matür kistik teratom olgusu sunulmuştur.

Olgu Sunumu

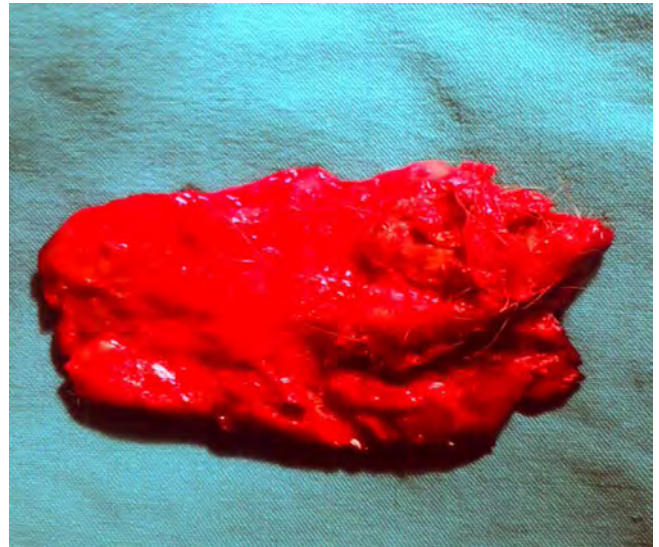
Kırkbeş yaşında erkek hasta, son altı aydır mevcut olan öksürük ve nefes darlığı şikayetleri ile başvurdu. Özgeçmişinde tıbbi açıdan özellik arz eden herhangi bir bulgu bulunmamaktaydı. Fizik muayenede, dinlemekle sağda solunum sesleri azalmıştı ve bunun dışında başka patolojik bulgu saptanmadı. Akciğer direkt grafisinde mediasteni dolduran, sağa doğru ekspanse opasite tespit edildi (Resim 1). Toraks bilgisayarlı tomografisinde; mediastinal kitlenin, torasik inlet seviyesinden itibaren prevasküler alandan izlenmeye başlanan, orta hattan sağa doğru uzanımlı 20x15x13 cm boyutunda, sıvı dansitesinde tek septalı kistik yapıda olduğu saptandı (Resim 2). Rutin laboratuvar incelemeleri ve ayırıcı tanı açısından istenen alfa fetoprotein (AFP) ve beta human koryonik gonadotropin (β -HCG) seviyeleri normaldi. Hastaya sağ lateral torakotomi uygulandı. Yapılan eksplorasyonda, kitlenin mediasteni tamamen doldurduğu, sağ akciğer alt ve orta lobda atelektaziye neden olduğu, akciğer parankimi, göğüs duvarı ve perikarda yapışık olduğu görüldü. Kitle, perikard ile yapışık olan kısım hariç subtotal rezekte edildi. Rezeksiyon materyalinde bol miktarda saç ve kıvrıdağımsı doku olduğu görüldü (Resim 3). Histopatolojik inceleme; dermal yapılar, sebase glandlar, sekretuar glandlar ve stromal dokudan oluşan matür kistik teratom olarak değerlendirildi. Bu nedenle herhangi bir adjuvan tedaviye gerek duyulmadı. Hastanın ameliyat sonrası birinci yıl takibinde nüks saptanmadı.



Resim 1. Akciğer direkt grafide; mediasteni dolduran, sağa doğru ekspanse opasite izlenmektedir (oklar).



Resim 2. Toraks bilgisayarlı tomografide; ön mediasteni dolduran kistik kitle izlenmektedir (oklar).



Resim 3. Eksize edilen kitlenin görünümü.

Tartışma

Testis ya da over kaynaklı primer tümör olmaksızın ortaya çıkan germ hücreli tümörler, ekstraponadal germ hücreli tümörler olarak adlandırılır [3]. Ekstraponadal germ hücreli tümörlerin etiyojenisi ve histogenezi henüz anlaşılamamış olmasına rağmen farklı hipotezler ileri sürülmektedir. Bir hipoteze göre; ekstraponadal germ hücreli tümörler emriyonel dönemde primordiyal germ hücrelerinin migrasyonunu tamamlayamamasına bağlı olarak ortaya çıkar. Başka bir hipoteze göre ise; germ hücreleri ters migrasyonla, görüldüğü ekstraponadal lokalizasyona yerleşmektedir [4,5]. Tüm germ hücreli tümörlerin % 3-7 'si ekstraponadal yerleşimdedir ve erişkinlerdeki en sık yerleşim yeri anterior mediastendir. Teratomlar ise mediastinal germ hücreli tümörlerin yaklaşık % 60'lık kısmını oluşturur [6].

Matür teratomlar sıklıkla genç erişkin dönemde saptanırlar. Ancak orta yaş döneminde tanı konulan olgular da bildirilmiştir. Bunun nedeni olarak genellikle asemptomatik olmaları ve kitlenin çevre organlara yaptığı bası belirtileri gelişene kadar tanı konulamaması gösterilebilir. Kitleler semptomatik hale geldiğinde en sık karşılaşılan yakınmalar öksürük, göğüs ağrısı ve nefes darlığıdır [7]. Bizim olgumuzda da son altı ayda ortaya çıkan, öksü-

rük ve nefes darlığı şikayeti mevcuttu. Nadir olmakla birlikte kitlenin komplike olmasına bağlı hemoptizi, kistik içeriğin ekspektorasyonu, tekrarlayan solunum yolu enfeksiyonu bulguları, stridor, ses kısıklığı, Horner Sendromu bulguları ve Vena Cava Superior Sendromu bulguları görülebilir [4,5].

Tüm mediastinel kitlelerde olduğu gibi teratomlarda da tanı öncelikle direkt grafilerde tespit edilen lezyonların ileri radyolojik incelemeleri ile konur. Göğüs tomografisi genelde düzgün sınırlı kitlenin içeriğinin tanımlanması, büyüklüğü ve komşu yapılarla ilişkisini ortaya koyması açısından yol göstericidir. Bilgisayarlı tomografide sıvı dolu kistler, yağ, yumuşak doku ve kalsifikasyondan oluşan bir kombinasyon izlenir. Bu görünüm ayırıcı tanı için önemlidir. Lezyonun içindeki yağ sıvı seviyeleri ise özellikle tanısaldır. Manyetik rezonans görüntüleme ise; lezyonun içeriğini ve komşu yapılarla ilişkisini gösterebilmesi açısından tercih edilebilir [3,7].

Teratomlar endoderm, ektoderm ve mezoderm en az ikisinden köken alan yapıları içeren, solit-kistik formda bulunmakla birlikte, ektodermal yapılar genellikle ön plandadır [8]. Bizim olgumuzda başta saç olmak üzere, deri eklerini yoğun olarak içermesi nedeniyle literatür ile uyumlu bulunmuştur.

Mediastinal kitlelerin ameliyat öncesi dönemde tanı alması çok güçtür. Bu nedenle, mediastinal kitle tespit edilen her hastanın cerrahi şansı zorlanmalıdır [9]. Mediastinal kitlenin lokalizasyonuna göre uygun cerrahi yaklaşımla hem kesin tanı hem de rezeksiyon yapılabilir. Mediastinel matür teratomların küratif tedavisi cerrahi rezeksiyondur. Ancak, kitleye komşu mediastinal yapıların (perikard, ana vasküler yapılar, hiler yapılar, özofagus gibi) yoğun yapışıklık nedeniyle total rezeksiyona imkan vermediği durumlarda subtotal rezeksiyon yapılabilir. Bununla birlikte, matür teratomlarda subtotal rezeksiyonlarda bile prognoz mükemmeldir [3]. Bizim olgumuzda da kitlenin perikarda fiks olması nedeniyle subtotal rezeksiyon uygulandı ve birinci yıl kontrolünde rekürrens tespit edilmedi.

Özellikle kalp ve büyük damarlar gibi hayati organlara baskı yapan dev mediastinal kitlesi olan hastalarda, mediastinal baskıyı ortadan kaldırmak ve kür sağlamak amacı ile rezeksiyon uygulanmalıdır. Bununla birlikte matür teratom gibi iyi huylu kitlelerde yapışıklıklar tam rezeksiyona izin vermiyorsa, kısmi rezeksiyon uygulanabilir bir seçenektir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Soysal O, Sarac K, Kutlu R, Aydın A, Benli A. A case of mediastinal teratoma presenting as a cystic lesion on chest wall. Eastern Journal of Medicine 1998;3:32-3.
2. Jung IM, Park SH, Park JG, Lee SH, Lee KY, Hahn ST. Teratoma with malignant transformation in the anterior mediastinum: A case report. Korean J Radiol 2000;1:162-4.
3. Wright CD. Germ Cell Tumors of The Mediastinum. In: Pearson FG, Cooper JD, Deslauries J, Ginsberg RJ, Hiebert CA, Patterson CA, Urschel HC, editors. Thoracic Surgery. 2 nd ed. Philadelphia: Churchill Livingstone; 2002.p.1711-9.
4. Glenn OA, Barkovich AJ. Intracranial germ cell tumors:a comprehensive review of proposed embryologic derivation. Pediatr Neurosurg 1996;24:242-51.
5. Chaganti RS, Houldsworth J. Genetics and biology of adult human male germ cell tumors. Cancer Res 2000;60:1475-82.
6. Roberts JR, Kaiser LR. Acquired lesions of the mediastinum:benign and malignant. In: Fishman AP, editor. Fishman's Pulmonary Diseases and Disorders. 3rd ed. Philadelphia: McGraw-Hill Companies; 1998.p.1509-37.
7. Shields T. Benign germ cell tumors of the mediastinum. In: Allen MS, Trastek VF, Pairolero PC, editors. General Thoracic Surgery. Philadelphia:

William&Wilkins;2000.p.2275-82.

8. Moran CA, Suster S. Primary germ cell tumors of the mediastinum:I. Analysis of 322 cases with special emphasis on teratomatous lesions and a proposal for histopathologic classification and clinical staging. Cancer 1997;80:681-90.

9. Gökçe M, Saydam Ö, Kılıçgün A, Karapolat S, Gezer S.Mediastinal Masses; the Analysis of 28 Cases in the Western Black Sea Region. J Clin Anal Med 2013;4(2):93-5

How to cite this article:

Albayrak İ, Tarladaçalışır T, Köse S, Koçal S. Giant Mediastinal Teratoma. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 175-7.



Second Primary Neuroendocrine Tumor in a Patient Operated Because of Lung Carcinoid Tumor: Small Cell Lung Cancer

Opere Akciğer Karsinoid Tümör Olgusunda İkinci Primer Nöroendokrin Tümör: Küçük Hücreli Akciğer Karsinomu

Akciğerde Metakron Kanser / Metachrone Cancer in the Lung

Jülide Çeldir Emre¹, Ayşegül Baysak², Gürsel Çok³, Deniz Nart⁴, Ufuk Çağırıcı⁵

¹Turgutlu Devlet Hastanesi Göğüs Hastalıkları Kliniği, Manisa, ²İzmir Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, İzmir,

³Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, İzmir, ⁴Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, İzmir,

⁵Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı, İzmir, Türkiye

Olgumuz II. Ulusal Akciğer Kanseri Kongresi, 1–5 Kasım 2006, Antalya kongresinde poster sunumu olarak kabul edilmiştir.

Özet

Günümüzde modern tedavi seçenekleri ile beraber kanserli hastalarda sağkalımın artması nedeniyle ikinci primer tümör görme olasılığı artmıştır. Onbeş paket/yılı sigara kullanım öyküsü olan 63 yaşındaki erkek hasta hemoptizi yakınmasıyla başvurmuş ve yapılan tetkikleri sonucunda akciğer karsinoid tümörü saptanarak opere edilmiştir. Düzenli poliklinik kontrolleri yapılan hasta, izleminin 52. ayında ikinci primer nöroendokrin tümör (küçük hücreli akciğer karsinomu) tanısı almıştır.

Anahtar Kelimeler

Metakron Tümör; Karsinoid Tümör; Küçük Hücreli Akciğer Kanseri

Abstract

Today with modern treatment options, the possibility of second primary tumor detection has been increased because of increased survey in cancer patients. A 63-year-old male patient with a 15 package/year smoking history, admitted to our clinic because of hemoptysis. After examinations, lung carcinoid tumor was detected and he was operated. During regular control on the 52nd month, he was additionally diagnosed second primary neuroendocrine tumor (small cell lung cancer).

Keywords

Metachrone Tumor; Carcinoid Tumor; Small Cell Lung Cancer

DOI: 10.4328/JCAM.2105

Received: 21.10.2013 Accepted: 16.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 178-80

Corresponding Author: Ayşegül Baysak, İzmir Üniversitesi Tıp Fakültesi Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, Yeni Girne Blv. 1825 sokak No:12 Karşıyaka, İzmir, Türkiye. T.: +90 2323995050 E-Mail: drbaysak@gmail.com

Giriş

Multipl kanserler, metakron ve senkron tümörler olarak sınıflandırılmaktadır. Tümör aynı veya çok kısa zaman aralığı içinde saptanırsa senkron, ikinci tümör birinciyi takiben 12 ay veya daha fazla bir süre sonra saptanırsa metakron tümör olarak tanımlanmaktadır [1]. Meme ve over gibi bazı organlarda nispeten sık görülen ikinci primer tümör gelişimi akciğerlerde ender rastlanan bir durumdur. Akciğer tümörlerinin %0.5-1'ini oluşturan, yaklaşık %75 oranında santral yerleşimli olan karsinoid tümörlerin cerrahi tedavi ile yüz güldüren sonuçlar verdiği bilinmektedir. Genellikle bronş duvarı ile sınırlı olup, bronş lümenine doğru büyümektedirler [2]. Karsinoid tümör operasyonundan dört yıl sonra ikinci primer nöroendokrin kökenli tümör olarak küçük hücreli akciğer karsinomu (KHAK) saptanan hastamız sunulmuştur.

Olgu Sunumu

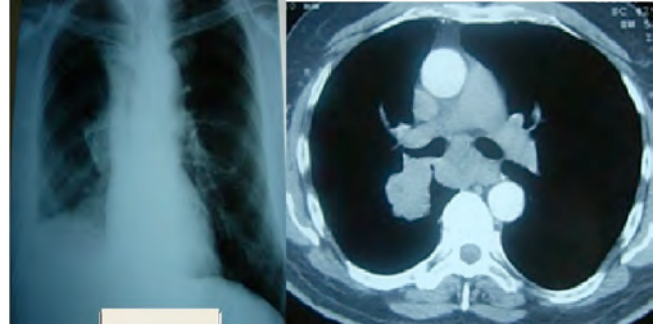
Onbeş paket/yılı sigara kullanım öyküsü olan 63 yaşında erkek olgunun hemoptizi nedeniyle yapılan tetkiklerinde akciğerde kitle lezyonu saptandı (Resim-1A). Toraks bilgisayarlı tomografisinde sağ alt lobda 2x3 cm boyutlarında kitle lezyonu izlendi. Bronkoscopisinde sağ alt lob posterior bronş ağzını tıkayan tümör görüldü. İleri tetkiklerinde metastaz bulgusu saptanmadı. Sağ alt lobektomi uygulanan olgunun operasyon materyalinin patolojisi tipik karsinoid tümör olarak rapor edildi. Postoperatif izlem akciğer grafisi Resim-1B'de görülmektedir. Göğüs Hastalıkları ve Onkoloji polikliniğine düzenli kontrollere gelen olgunun 52. aydaki kontrolünde çekilen akciğer grafisinde patoloji saptanması üzerine istenen toraks bilgisayarlı tomografisinde yeni ortaya çıkan mediastinal lenf bezleri, sağ üst lob posterior segment bronşunun distalinde sağ pulmoner artere invazyon gösteren yaklaşık 6x5 cm boyutunda kitle lezyonu saptandı (Resim-2). Yapılan bronkoskopik incelemede sağ akciğer üst lob bronş ağzını tama yakın tıkayan endobronşiyal tümör görüldü. Alınan biyopsi sonucu küçük hücreli akciğer karsinomu olarak rapor edildi (Resim-3A, B, C). İleri tetkiklerinde uzak metastaz saptanmadı ve sınırlı evre hastalık olarak kabul edilerek kemoterapisi başlandı. Olgu sunumu için onamı alınan hasta üçüncü kür kemoterapi sonrası gelişen pnömoni nedeniyle eksitus oldu.

Tartışma

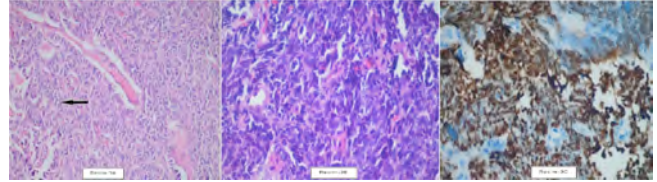
Bronşiyal karsinoid tümörlerin yaklaşık %10'unu atipik karsinoid tümörler oluşturmaktadır ve yarısından fazlası periferiktir. Buna karşın tipik karsinoid tümörlerin çoğu (%80) santral yerleşimli olup bunların %20'si ana bronшта, %60'ı lobar ya da segment



Resim 1. Olgunun ilk başvurusunda çekilen akciğer grafisi (A), Olgunun postoperatif izlemde çekilen akciğer grafisi (B)



Resim 2. Olgunun postoperatif 52. ayda çekilen kontrol akciğer grafisi ve toraks BT bulguları



Resim 3. Olgunun patoloji preparatında rozet benzeri yapılar oluşturan tümör hücreleri (A), Oldukça hiperkromatik nükleusa sahip çok sayıda mitoz ve sıkışma artefaktı içeren küçük hücrelerden oluşmuş tümör (B), Tümör hücrelerinde TTF1 pozitifliği (C).

bronşlarında ve %20'si ise periferik yerleşmektedir [3]. Dispne, hemoptizi ve stridor çok sık görülen semptomlar olup, tekrarlayıcı pnömoni ve bronşun tam olarak tıkanmasına bağlı akciğer absesi şeklinde de kendisini gösterebilmektedir.

Diñçer ve ark. [4]'nın yaptığı bir çalışmada karsinoid tümör tanısı almış olguların 20'sine lobektomi, 8'ine bronkoplastik rezeksiyon ve 4'üne pnömonektomi uygulanmış; histopatolojik olarak olguların 30'u tipik ve 2'si atipik karsinoid tümör olarak raporlanmıştır. Çoğunluğu (n:28, %88) Evre I olguların 7-126 aylık izlemlerinde lokal nüks ya da uzak metastaz görülmemiştir.

İkincil kanser gelişiminde belki de en önemli faktör, hastanın genetik yatkınlığıdır [5]. Prognostik faktörler olarak yaş, cinsiyet, performans durumu, sigara içiciliği, kanser tutulum bölgesi, histoloji, evre ve ilk cerrahi girişim tipi incelenmiş ve yeni tümör gelişimi için anlamlı bağımsız faktör bulunamamıştır [6].

Turhan ve ark.[7] 'nın çalışmasında 1997-2006 yılları arasında akciğer kanseri nedeniyle opere edilen 255 olgu arasından 2 metakron (%0.78) ve 2 senkron (%0.78) akciğer karsinomu olgusu saptanmıştır.

Akciğer tümörlerinin histolojik sınıflaması Dünya Sağlık Örgütü tarafından 2004 yılında yeniden düzenlenmiştir [8]. Tüm akciğer kanserlerinin %85'ini küçük hücreli dışı akciğer kanseri, %5'ini karsinoid tümörler oluşturmaktadır. Bronşiyal karsinoid tümörlerin köken aldığı hücre konusunda çeşitli görüşler olmasına rağmen, bu tümörlerin bronş mukozasındaki "amine precursor uptake and decarboxilation" (APUD) sistemine ait nöroendokrin hücrelerden köken aldığı kabul edilmektedir. Küçük hücreli dışı akciğer kanseri ile karşılaştırıldığında, KHAK genellikle daha hızlı iki katına çıkma zamanına sahiptir ve yaygın metastazlar daha erken görülmektedir. KHAK olgularının büyük çoğunluğu sigaraya bağlı olarak ortaya çıkmaktadır; öte yandan, geri kalan vakaların çevresel veya genetik faktörlere bağlı olduğu düşünülmektedir. Bizim olgumuz ilk operasyondan 1 ay önce sigarayı bırakmıştı; ancak 15 paket/yılı sigara öyküsü mevcuttu. Cerrahiden fayda görebilecek bronşiyal karsinoidler ve iyi diferansiyeli nöroendokrin karsinom olgularının ayırıcı tanısının doğru yapılması önem taşımaktadır. KHAK'li hastalarda, otopsilerin

%30'a varan oranında küçük hücreli dışı karsinom diferansiyasyon alanları da saptanmaktadır. KHAK'leri epitelial zar antijeni, keratin ve tiroid transkripsiyon faktörü 1 (TTF1)'e immünoreaktiftir. Bizim olgumuzun geçmişinde karsinoid tümör öyküsü olması nedeniyle alınan bronkoskopik biyopsi materyallerinin immünohistokimyasal incelemeleri ayırıcı tanı açısından detaylı incelendi. Materyallerin patolojisi küçük hücreli akciğer karsinomu olarak rapor edildi.

Sonuç olarak, tipik karsinoid tümör de olsa özellikle sigara içen tüm akciğer kanseri olguları nüks ya da ikinci primer kanser açısından düzenli aralıklarla takip edilmelidir [10-12]. Karsinoid tümör sonrası metakron nöroendokrin kanser saptanan olgu sunumu literatürde saptanmamıştır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Van Leeuwen FE, Travis LB. Second cancers. In: De Vita VT, Hellman S, Rosenberg SA (eds). Cancer, Principles and Practice of Oncology, 6th edition. Philadelphia: Lippincott-Williams&Wilkins; 2001.p.2939-64.
2. Ginsberg RJ. Carcinoid tumors. In: Shields TW, LoCicero J, Ponn RB, eds. General Thoracic Surgery. Philadelphia: LippincottWilliams&Wilkins, 2000.p.1493-504.
3. Hall EJ (ed). Radiation carcinogenesis. In: Hall EJ(ed). Radiobiology for the radiologist, 5th edition. New York: LippincottWilliams&Wilkins; 2000.p.144-65.
4. Van Leeuwen FE, Travis LB. Second cancers. In: De Vita VT, Hellman S, Rosenberg SA (eds). Cancer, PrinciplesandPractice of Oncology, 6th edition. Philadelphia: Lippincott-Williams&Wilkins; 2001.p.2939-64.
5. Sarhan S, Gebitekin C, Yerci Ö, Kurt M, Çetintaş SK, Engin K. Bir olgu nedeniyle ikinci primer akciğer karsinomlarının değerlendirilmesi. Uludağ Üniversitesi Tıp Fakültesi Dergisi 2004; 30(1):47-52.
6. Beltrami V, Montesano G, Bertagni A, Gallinaro G. Second primary lung cancer: possible prediction, treatment and prognosis. Chir Ital 1999; 51(39):189-92.
7. Turhan K, Yoldaş B, Çağırıcı U, Çakan A. Senkron ve metakron akciğer kanserlerinde cerrahi tedavi sonuçları. Ege Tıp Dergisi 2009; 48(2):85-8.
8. Travis WD, Brambilla E, Müller-Hermelink HK, Harris CC. World Health Organisation Classification of Tumours. Pathology & Genetics. Tumours of the lung, pleura, thymus and heart. Lyon: IARC press; 2004
9. Cansever L, Kocatürk İC, Fazlıoğlu M, Bedirhan MA. Ondört yıl sonra nüks eden endobronşiyal tipik karsinoid tümör. Solunum 2007; 9(3): 187-89.
10. Dinçer Sİ, Olgaç G, Demir A ve ark. Bronşiyal karsinoid tümörlerde cerrahi tedavi sonrası uzun süreli izlem sonuçları. Toraks Dergisi 2002; 3(3): 279-83.
11. Toraks Derneği Akciğer Kanseri Tanı ve Tedavi Rehberi. Ağustos 2006; Ek(2):1-35.
12. Adnan Aydın, Erkan Topuz. Akciğer Kanseri. Tanı-Tedavi-Takip. İstanbul Konsensusu 2006 s:49-50.

How to cite this article:

Emre JÇ, Baysak AB, Çok G, Nart D, Çağırıcı U. Second Primary Neuroendocrine Tumor in a Patient Operated Because of Lung Carcinoid Tumor: Small Cell Lung Cancer. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 178-80.



A Complication That Can Be Faced After Embolectomy: Drug Caused Coagulation Problem

Embolektomi Sonrası Yaşanabilecek Bir Komplikasyon: İlaç Nedenli Koagülasyon Problemi

Antikoagülasyon ve Vasküler Cerrahi / Anticoagulation and Vascular Surgery

Erdal Şimşek, Aytaç Çalışkan, Başak Soran, Ufuk Tütün
Türkiye Yüksek İhtisas Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kalp Damar Cerrahisi Kliniği, Ankara, Türkiye

21-24 Mart 2013 tarihinde Antalya'da yapılan 9. Uluslararası Kardiyoji ve Kardiyovasküler cerrahi de yenilikler kongresinde poster olarak sunuldu.

Özet

Vasküler hastalıkların tedavisinde, cerrahi ile antikoagülan tedavi birbirini tamamlayan bir ikili olarak karşımıza çıkar. Bu hastalıklarda cerrahi tedavi ne kadar başarılı olursa olsun temelinde vaskülopati yattığı için cerrahi sonrası sıklıkla antikoagülasyona ihtiyaç duyulur. 51 yaşında kadın hastaya sol üst extremite akut emboli tanısı ile operasyon uygulandı. Distal nabızlar mevcut olarak düşük molekül ağırlıklı heparin tedavisi ile taburcu edildi. Post operatif, 7. günde akut sol üst extremite arteriyel tromboz ile başvurdu. Tekrar cerrahi müdahale yapıldı. Takiplerinde trombositopeni ve arteriyel tromboz gelişti. Hasta operasyon sonrası 7. günde klopidogrel tedavisi ile taburcu edildi. Vasküler tıkanıklıklarda cerrahinin yanı sıra antikoagülan tedavi de prognozu belirleyen önemli faktörlerden biridir. Trombin inhibitör ilaçların yanı sıra diğer alternatif tedavilerde ki gelişmeler ile hem cerrahi başarının artacağına hemde mortalite ve morbiditenin azalacağına inanıyoruz.

Anahtar Kelimeler

Heparin; Embolektomi; Kan Pıhtılaşması

Abstract

In treatment of vascular diseases, surgery and anticoagulant treatment confront us as a couple supplementing each other. In these diseases, no matter how successful the surgical treatment is, anticoagulation is frequently necessary after surgery because vasculopathy lies behind them. An operation was executed to a 51-year-old woman with a left upper extremity acute emboli diagnosis. She was discharged from hospital with low molecule nominal heparin treatment in the presence of distal pulse. She applied with acute left upper extremity arterial thrombosis on the 7th day of the post operation. Surgery is repeated again. In the follow-up, thrombocytopenia and arterial thrombosis developed. The patient was discharged with clopidogrel treatment on the 7th day of the post operation. Anticoagulant treatment as well as surgery is one of the most significant factors determining the prognosis in vascular blockages. We believe that with the developments in alternative treatments along with inhibitor drugs, both the success of the surgeries will increase and mortality and morbidity will decrease.

Keywords

Heparin; Embolectomy; Blood Coagulation

DOI: 10.4328/JCAM.2123

Received: 31.10.2013 Accepted: 16.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 181-3

Corresponding Author: Erdal Şimşek, Türkiye Yüksek İhtisas Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Kızılay Sokak, Altındağ, Ankara, Türkiye.

GSM: +905323280217 E-Mail: erdaldr@yahoo.com

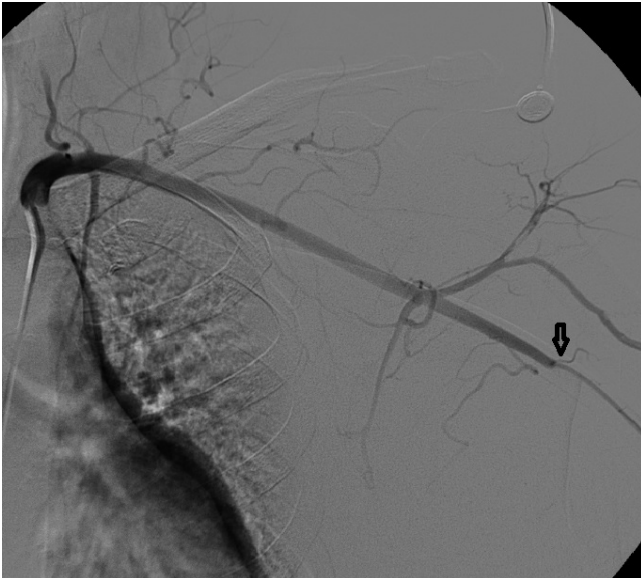
Giriş

Gerek arteriyel gerekse venöz sisteme ait vasküler hastalıkların tedavisinde heparin, hayat kurtaran ajan olarak tedavide yerini almıştır. Nadir görülmekle birlikte heparin ile trombosit faktör-4'ün (PF-4) oluşturduğu komplekse immunglobulin G'nin (Ig G) bağlanması sonucu morbidite ve mortalite ile seyreden trombosit agregasyonu ve trombozlar meydana gelir. Bu klinik tabloda trombositopeni ve koagülasyonlar ile seyreden cerrahi tedaviye yanıt vermeyen heparin bağımlı trombositopeni (HBT) gelişir.

Olgu Sunumu

51 yaşında kadın hasta acil servise sol üst extremité de ağrı ve soğukluk şikayeti ile başvurdu. Yapılan doppler ultrasonografi de akut brakial arter embolisi tanısı konuldu. Obezite dışında ek risk faktörleri saptanmadı (koagülasyon bozuklukları, aritmi, kalp kapak hastalığı, ilaç ve sigara kullanımı). Acil şartlarda lokal anestezi altında sol brakial bölgeden yapılan insizyon ile 3F fogarty kateteri kullanılarak arteriyel embolektomi yapıldı (Subakut-akut süreçte trombus). Takiplerinde heparin tedavisi alan hasta post-operatif 2. günde radial ve ulnar nabızlar pozitif olarak düşük molekül ağırlıklı heparin (enoksaparin 0.6 ml 2x1 cilt altı) tedavisi ile taburcu edildi. 7 gün sonra hasta, sol üst extremitéde ani gelişen soğukluk ve solukluk şikayeti ile tekrar başvurdu. Yapılan doppler ultrasonografi ve anjiyografi de (Şekil 1) sol brakial arter proksimal kısmından başlayıp, distale kadar uzanan, radial ve ulnar arterleri içeren akut süreç de trombus saptandı. Tekrar selektif embolektomi yapıldı (akut trombus). Distal nabızları palpabl olarak operasyondan çıkan hastaya heparin infüzyonu başlandı. Takiplerinde trombosit değerleri 320.000/μl den 24.000/μl'ye düştü ve tekrar radial ve ulnar arterler tromboze oldu. Dijital emboliler gelişti (Şekil 2). Antikardiolipin IgG ve IgM (6.337 u/ml ve 4.498 u/ml), antifosfolipid IgG ve IgM (2.969 u/ml, 8.597 u/ml), anti-tiroglobulin antikorları (14.66 IU/ml), protein-C (%137), protein-S (%92), lupus antikoagülan (1.16 R), faktör VII (%148), von Willebrand faktör (%178), reptilaz zamanı (16.1 sec), faktör V (%83), ristosetin faktör (227 sn) değerlerine bakıldı. Hematolojik açıdan ek bir patoloji saptanmadı. Biyokimyasal değerleri normaldi.

Heparin yerine vazodilatatör tedavi başlanıldı. Trombosit de-



Şekil 1. Proksimal brakial arter total oklüzyonu.



Şekil 2. Dijital emboli

ğerleri normal seviyeye ulaştıktan sonra varfarin tedavisine geçildi. Varfarin tedavisi sırasında INR (international normalized ratio) değeri 1.8 iken, sağ frontal lobda intraserebral hemoraji ve sol hemipleji gelişti. Varfarin tedavisi sonlandırıldı. Takiplerinde nörolojik defisit geriledi. Kollateral damarlar ve medikal tedavi ile yeterli kan akımının sağlandığı, distaldeki akut iskeminin düzeldiği görüldü. 6 aylık takiplerinde herhangi bir amputasyona ihtiyaç olmadı. Hastanın takiplerine fizik tedavi ve rehabilitasyon kliniği ile birlikte devam edilmektedir.

Tartışma

HBT gelişen hastalarda erken tanı ve tedavi gelişebilecek morbidite ve mortaliteyi azaltmada son derece önemlidir.

HBT'nin kliniğinde bir yanda yeni gelişen trombozlar ve mikro emboliler, diğer yanda kanama riski ile baş edilmesi gerekir. Tanı sıklıkla klinik ve trombosit değerlerinin düşmesi ile konulabilmesine karşın trombosit aktivasyon ve agregasyon analizleri ile de doğrulanabilir. 4-14 gün arasında heparin tedavisi almış olgularda, açıklanamayan trombosit değerlerinde düşme (%50'den fazla) görülmesine karşın tekrarlayan trombozların olması HBT'den şüphelenilmesine neden olur [1]. Olgumuzda, trombosit değerlerinin düşmesi, damar yapısında önemli bir patoloji olmaksızın tekrarlayan trombozlar, dijital mikro embolilerin gelişmesi ile HBT'den şüphelenilerek tanı konuldu. Heparin tedavisinin kesilmesi ile trombosit değerlerinin dramatik olarak normal seviyelere ulaşması önemliydi. Bakılan diğer hematolojik ve immünolojik parametreler normaldi.

HBT tedavisinde, heparin tedavisinin durdurulması sıklıkla sorunu çözmesine rağmen damarsal hastalığa eşlik eden trombozlara yönelik gerekli tedavi için yeni ilaç seçimi de bir o kadar önemlidir.

Varfarinin sebep olabileceği cilt nekrozu, ekstremitelerde venöz gangren tehlikesi nedeniyle aktif HBT olgularında kullanımına dikkat edilmelidir. Düşük molekül ağırlıklı heparin kullanımı ise bu ilaçların dolaşımdaki PF4-heparin antikorları ile çapraz reaksiyona girmesi sebebiyle önerilmemektedir [2]. Bu nedenle HBT tedavisinde direkt trombin inhibitörleri veya heparinoidler ile antikoagülasyon gerekir.

Direkt trombin inhibitörleri için birkaç tane seçenek vardır.

Lepirudin'in, HBT hastalarında kontrol gruplarına göre daha düşük sayıda trombotik olay gelişmesine neden olduğu ancak, daha fazla sayıda ciddi kanama sorunlarına yol açtığı rapor edilmiştir [3]. Ayrıca daha önce lepirudin tedavisi almış hastalarda bu ilaca karşı fatal anafilaksiye kadar giden duyarlılaşmalar olduğu bilinmektedir. Bu nedenle HBT hastalarının, bu molekülle tekrarlayan tedavisi önerilmemektedir.

Argatroban bir diğer direkt trombin inhibitörüdür. Bu molekülün de aynı lepirudin gibi HBT hastalarında kontrol gruplarına göre yeni trombotik olayların gelişmesini azalttığı, ancak farklı olarak ciddi kanama oranlarında artış yapmadığı gösterilmiştir [4]. Ayrıca şu ana kadar argatrobanı karşı antikor oluşumuna ve duyarlılaşmaya rastlanılmamıştır.

Bivalirudin perkutan koroner girişimlerde HBT riski olan hastalarda kullanımına onay verilen bir moleküldür. Kısa yarı ömrü nedeniyle kardiyopulmoner bypass operasyonlarında HBT olasılığı olanlarda heparine alternatif olabirliği araştırılmaktadır. Ayrıca HBT tedavisinde trombotik olayların engellenmesinde argatroban ile benzer sonuçlar ve benzer kanama oranları bulunmuştur [5]. Ancak daha geniş çaplı klinik araştırmalar henüz yapılmamıştır.

Danaparoid, heparan sülfat ve dermatan sülfat karışımı olan moleküldür ve antitrombin aracılı faktör Xa inhibisyonu yaparak etki gösterir. Yeni trombozları önlemede etkili olup, heparinle çapraz reaksiyon ve kanama komplikasyon oranları düşüktür. HBT tedavisinde alternatif olmaya aday yeni moleküller oral kullanılan faktör Xa inhibitörleri ve direkt trombin inhibitörleridir. Atrial fibrilasyon ve derin ven trombozu için profilaksi amacıyla kullanımı onaylanan bu moleküllerin, HBT tedavisinde kullanımını açısından henüz yeterli çalışma olmamakla birlikte başarılı sonuçlar bildirilmektedir [6]. Heparin ile benzerliği olmayan bu moleküllerden rivaroksabanın ve dabigatranın in-vitro şartlarda PF4 ve anti-PF4/heparin antikorları ile reaksiyona girmedığı görülmüştür [7]. Oral kullanılan faktör Xa inhibitörü apixabanın da, HBT antikorları ile reaksiyona girmedığı görülmüştür. Hastalığın tedavisinde ve önlenmesinde farklı bir seçenek olabileceği öngörülmektedir [8].

HBT tedavisi için öncelikle bahsedilen antikoagülanlardan hastaya göre uygun bir tanesinin başlanması, trombosit sayısı 150.000/μl düzeyini geçince varfarinin tedaviye eklenmesi ve INR değeri en az 48 saat teropotik düzeyde olacak şekilde beş gün birlikte kullanılması önerilmektedir [9].

Hastamızda heparine bağımlı trombositopeni geliştikten sonra trombosit değerleri normale gelmesine rağmen varfarin tedavisi sonrası sorunlardan uzaklaşamamıştır. Eğer kontrendikasyon yoksa direkt trombin inhibitörleri ve faktör Xa inhibitörleri ile alternatif tedavilere yönelerek morbidite ve mortalitenin azaltılabileceğine inanıyoruz. Diğer antikoagülanlar ile yapılan geniş kapsamlı çalışmalara daha fazla önem ve hız verilmesi gerekliliği olgumuz ile tekrar gündeme gelmiştir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Arslan D, Guvenc O, Cimen D, Oran B. Heparin-Induced Thrombocytopenia Association with Impaired Liver Function Tests. Journal of Clinical and Analytical medicine doi: 10.4328/JCAM.1745

2. Warkentin TE, Cook RJ, Marder VJ, Sheppard JA, Moore JC, Eriksson BI et al. Antiplatelet factor 4/heparin antibodies in orthopedic surgery patients receiving antithrombotic prophylaxis with fondaparinux or enoxaparin. Blood 2005; 106 (12): 3791-6.
3. Lubenow N, Eichler P, Lietz T, Farner B, Greinacher A. Lepirudin for prophylaxis of thrombosis in patients with acute isolated heparin-induced thrombocytopenia: an analysis of 3 prospective studies. Blood 2004;104: 3072-7.
4. Lewis BE, Wallis DE, Berkowitz SD, Matthai WH, Fareed J, Walenga JM et al. Argatroban anticoagulant therapy in patients with heparin-induced thrombocytopenia. Circulation 2001;103:1838-43.
5. Nikolaidis N, Velissaris T, Ohri SK. Bivalirudin Anticoagulation for Cardiopulmonary Bypass Tex Heart Inst J. 2007; 34(1): 115-18.
6. Mirdamadi A. Dabigatran, a direct thrombin inhibitor, can be a life-saving treatment in heparin-induced thrombocytopenia. ARYA Atheroscler. 2013 Jan;9(1):112-4.
7. Krauel K, Hackbarth C, Füll B, Greinacher A. Heparin-induced thrombocytopenia: in vitro studies on the interaction of dabigatran, rivaroxaban, and low-sulfated heparin, with platelet factor 4 and anti-PF4/heparin antibodies. Blood. 2012;119(5):1248-55.
8. Walenga JM, Prechel M, Hoppensteadt D, Escalante V, Chaudhry T, Jeske WP et al. Apixaban as an alternate oral anticoagulant for the management of patients with heparin-induced thrombocytopenia. Clin Appl Thromb Hemost 2013;19(5):482-7.
9. Arepally GM, Ortel TL. Heparin Induced Thrombocytopenia. N Engl J Med. 2006; 355(8): 809-17.

How to cite this article:

Şimşek E, Çalışkan A, Soran B, Tütün U. A Complication That Can Be Faced After Embolectomy: Drug Caused Coagulation Problem. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 181-3.



Mirror Movement in an Isolated Case and in a Case with Klippel-Feil Syndrome

İzole ve Klippel-Feil Sendromuna Eşlik Eden Ayna Hayali Hareketi Olan İki Olgu Sunumu

Ayna Hayali Hareketi / Mirror Movement

Mehmet Canpolat¹, İlknur Çelik², Selim Doganay³, Hakan Gumus¹, Hüseyin Per¹

¹Cocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, Çocuk Nöroloji Bilim Dalı, ²Cocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı,

³Çocuk Radyoloji Bilim Dalı, Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kayseri, Türkiye

15. Ulusal Çocuk Nörolojisi Kongresi'nde, 22-25 Mayıs 2013, Sivas'da Poster bildirisi olarak sunulmuştur.

Özet

Ayna hayali hareketler, vücudun bir tarafında meydana gelen ve kontralateral istemli hareketin örneğini taklit eden istemsiz hareketlerdir. Kalıcı ayna hayali hareketleri çeşitli konjenital malformasyonlarla birliktelik gösterebilir. Anomalilerin eşlik etmediği ailevi ve sporadik olgulara da rastlanılabilmektedir. Klippel-Feil Sendromu gestasyonun 8. Haftasında servikal somitlerin segmentasyonunda yetersizlik sonucu gelişen en az iki servikal segmentte füzyon görülen konjenital bir malformasyondur. Bu yazıda biri izole diğeri Klippel-Feil Sendromu ile birliktelik gösteren iki ayna hayali hareketi olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Ayna Hayali Hareketi; Klippel Feil Sendromu; Çocuk

Abstract

Mirror movements are involuntary movements that occur in homologous contralateral muscles on voluntary activation. Persistent mirror movements may be associated with congenital malformations; however, familial syndromes or sporadic cases without any associated anomalies are also noted. Klippel-Feil syndrome is a congenital malformation that exists secondary to the failure of the normal segmentation of cervical somites during the third and eighth weeks of gestation. Hereby, we present two cases with mirror movement: isolated and associated with Klippel-Feil syndrome.

Keywords

Mirror Movements; Klippel-Feil Syndrome; Child

DOI: 10.4328/JCAM.2130

Received: 03.11.2013 Accepted: 16.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 184-6

Corresponding Author: Mehmet Canpolat, Erciyes Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı, 38039 Kayseri, Türkiye.

T.: +90 3522076666 (Dahili: 25148) F.: +90 3524375 E-Mail: drmehmetcanpolat@gmail.com

Giriş

Ayna hayali hareketleri, vücudun bir tarafında meydana gelen istemli hareketi eş zamanlı olarak vücudun karşı tarafındaki homolog kaslarda taklit eden istemsiz hareketlerdir. Ayna hareketleri erken çocukluk döneminde sık görülür ve genellikle de hayatın ilk on yılından sonra kaybolurlar. Bazı nadir olgularda kalıcı ayna hareketleri otozomal dominant ya da inkomplet penetransla geçiş gösterir ve diğer nörolojik bulgular olmaksızın ortaya çıkarlar [1,2]. Diğer taraftan bu durum, çeşitli konjenital malformasyonlarla da birliktelik gösterebilir ya da motor yolların erken unilateral lezyonları sonrasında oluşabilir [3-4]. Bu patolojik durum Kallmann sendromunun X'e bağlı geçen formunda, Klippel-Feil Sendromu (KFS) ve korpus kallozum agenezisinde görülebilmektedir. Bununla birlikte ailevi ve sporadik olgulara da rastlanmaktadır [5,6]. Günümüzde ipsilateral kortikospinal traktın anormal gelişimi veya transkallozal inhibisyonun eksikliği ayna hayali hareketini açıklayan iki ana hipotez olarak kabul edilmektedir [7].

KFS gestasyonun 8. haftasında servikal somitlerin segmentasyonunda yetersizlik sonucu gelişen en az iki servikal segmentte füzyon görülen konjenital bir malformasyondur. Klasik triadında kısa boyun, aşağı yerleşimli saç çizgisi ve boyun hareketlerinde azalma vardır. Genellikle çocuk yaşlarda klinik belirtiler görülmeye başlasa da nadir olgularda ileri yaşlarda tanı konulur. Boyun hareketlerinin azalması en sık görülen bulgudur. KFS ile birlikte skolyoz ve/veya kifoz (%60), Sprengel deformitesi (%30) ve tortikollis gibi iskelet sistemi anomalileri, üriner sistem anomalileri (%35), işitme kaybı (%30), yüzde asimetri ve esnede yayvanlaşma (%20), sinkinezi veya ayna hareketleri (%20), doğumsal kalp hastalıkları (%4.2-14) görülebilir [7-13]. Konjenital ayna hayali hareketi ve KFS birlikteliği literatürde bildirilmiştir [4-11, 14].

Bu çalışmada kliniğimize ayna hareketi ile başvuran, incelemeler sırasında herhangi bir anomalinin eşlik etmediği izole ve KFS birlikteliği tespit edilen iki olgu literatür eşliğinde sunulmuştur.

Olgu Sunumu 1

12 yaşında, kız olgu, bir eliyle yazı yazarken veya bir elini oynatırken diğer elinde ona benzer hareketler yapması nedeni ile başvurdu. Hastanın ailesiden bu şikayetin 4-5 yıldır olduğu öğrenildi. Hastanın prenatal ve postnatal öyküsünde bir özellik olmadığı, bir yaşında geçirilmiş bir basit febril konvülsiyon hikayesi olduğu, anne ve baba arasında akrabalık olmadığı öğrenildi. Hastanın fizik muayenesinde ellerde ince motor hareketlerde, bir elin yaptığı hareketlere diğer elinde istemsiz olarak eşlik ettiği gözlemlendi. Diğer sistem muayene bulguları doğaldı. Laboratuvar incelemesinde hemogram, rutin biyokimya ve tiroid fonksiyon testleri normaldi. Beyin manyetik rezonans görüntülemesi (MRG) ve servikal spinal MRG'si normaldi. Nörometabolik açıdan yapılan göz muayenesi normal olarak değerlendirildi. Elektromiyografide (EMG) intrensek el kaslarının, ön kolun fleksor ve ekstensor kaslarının istemli kontraksiyonu, diğer tarafın aynı kas gruplarında EMG aktivitelerine neden oldu. Hastada ayna hareketine eşlik eden herhangi bir konjenital yapısal anormali tespit edilmedi. Tüm bu bulgulara dayanarak izole ayna hayali hareketi tanısı konuldu.

Olgu Sunumu 2

4 yaş 5/12 aylık, kız olgu bir elinin yaptığı hareketi diğer eli ile istemsiz olarak yapma şikayeti ile başvurdu. Annesinden alınan anamnezden doğumdan itibaren bir eliyle ne hareket yaparsa diğeri ile de aynı hareketi yaptığı öğrenildi. Hastanın prenatal öyküsünde bir özellik yoktu. Postnatal öyküsünde topuk tarama testinde hipotiroidisi tespit edilerek tedavisinin başlandığı, 6 aylıkken sağ inguinal herni nedeniyle opere edildiği öğrenildi. Anne baba arasında akrabalık yoktu. Fizik muayenesinde; kısa-yele boyun, düşük ense saç çizgisi, yüksek damak, hipertelorizm, pektus ekskavatum, bilateral pes planus ve meme başlarının birbirinden ayırık olduğu tespit edildi. Boyun lateral rotasyonu bilateral kısıtlı idi. Yürürken ayakları içe basıyordu. Diğer sistem muayene bulguları normal olarak değerlendirildi. Laboratuvar incelemesinde hemogram, rutin biyokimyasal testleri ve tiroid fonksiyon testleri normal sınırlardaydı. Radyografide servikal vertebralarda füzyon olduğu tespit edildi (Resim 1). Mevcut bulgularla KFS ve ayna hayali hareket bozukluğu tanısı konuldu. KFS açısından eşlik eden diğer sistem anomalilerine yönelik yapılan renal ultrasonografisinde, sağ böbrekte minimal ektazi izlendi. Beyin MRG ve ekokardiyografi normaldi. Spinal MRG'de KFS ile uyumlu olarak servikal vertebralarda segmentasyon ve füzyon anomalileri izlendi (Resim 2).

Tartışma

Ayna hayali hareketler bir ekstremitedeki istemli hareketin benzer veya aynısının, eş zamanlı olarak vücudun karşı tarafındaki homolog kaslarda gözlemlendiği istemsiz hareketler olarak tanımlanır [14]. Genellikle üst ekstremitelerin distalinde yapılan hareketin benzeri karşı tarafta görülür. Otozomal dominant ve resesif kalıtılan ve belirli bir neden gösterilemeyenlerin yanında pek çok gelişimsel kusur veya hastalıkla birlikteliği bildirilmiştir. Kallman sendromu, KFS, diastematomyeli, servikal meningoel, gergin spinal kord, Chiari tip I ve III, korpus kallozum agenezisi, baziller invaginasyon, kondrodistrofi, Usher sendromu, epilepsi, distoni, inme, Freidreich ataksisi, diyabet insipidus, fenilketonüri ve intrakraniyal tümör bunlar arasındadır [1-6,11,14]. Erken çocukluk döneminde sık görülmekle beraber yaşın ilerlemesiyle prevalansı ve şiddeti azalmaktadır. Çocukluk döneminde görülen bu ayna hayali hareketlerinin kaynağı kesin olarak bilinmemektedir, ancak istemli hareketler sırasında ipsilateral kortikospinal traktın da aktive olduğuna inanılmaktadır. Normal şartlarda bu aktivasyon korpus kallosum tarafından inhibe edilir. Korpus kallosumdaki fibrillerin miyelinizasyonu 10-13 yaşlarına doğru tamamlandığından bu yaşlara kadar transkallosal yollar fonksiyonlarını tam olarak yapamazlar ve gerekli inhibisyon sağlanamadığından istemli hareketin karşı tarafında ayna hareketi oluşur. [1-6,11,14]. Ayna hayali hareketi oluşumunu açıklayan iki ana hipotez mevcuttur. Birinci hipotez erken çocukluk dönemi geçilmesine rağmen transkallozal inhibisyonun sağlanamamasına bağlı ayna hareketi oluşmasıdır [14]. Sunulan ilk olgumuzdaki ayna hareketinin oluşumunu bu hipotez açıklamaktadır. KFS gestasyonun erken dönemlerinde iki veya daha fazla vertebrada segmentasyon yetersizliği nedeniyle servikal vertebralarda füzyon olması buna boyun kısalığı, saç çizgisi düşüklüğü ve boyun hareketlerinin kısıtlanmasının eşlik ettiği bir iskelet displazisidir [7,8]. Olguların %65'i kadındır. Sıklığının 40000-42000 doğumda 1 olduğu tahmin edilmektedir [7,9]. Bu sendroma skol-



Resim 1. AP servikal vertebra grafisinde servikotorasik bileşkede kelebek vertebra ve hemivertebrayı da içeren çok sayıda segmentasyon anomalisi ve buna bağlı olarak açıklığı sağa bakan skolyoz izlenmektedir (ok).



Resim 2. Mid-sagittal T2 ağırlıklı MRG'de servikal vertebralarda segmentasyon anomalileri ve blok vertebra (ok) görünümü izlenmektedir.

yo, kifoz, sprenkel deformitesi, tortikolis, üst ekstremitelerde diffüz ya da fokal hipoplazi, sindaktili gibi lokomotor sistem anomalileri eşlik edebilir [7-13].

KFS'li hastalarda genitoüriner sistem anomalileri %35-65, işitme kaybı %30, konjenital kalp hastalıkları %5-15 (en sık ventriküler septal defekt) eşlik edebilir. Üriner sistem anomalilerinden en sık renal agenezi, çift toplayıcı sistem, renal ektopi, bilateral tubuler ektazi ve hidronefroz görülmektedir [8,9].

KFS'li hastalar vertebral füzyonun yerleşimine göre 3 grupta in-

celenebilir. Tip 1 servikal vertebraların tamamında ya da tamamına yakınında ve üst torakal vertebralarda füzyon vardır. Tip 2'de ikili ya da üçlü segmentler halinde füzyon vardır. Tip 3'de ise servikal vertebra füzyonuna alt lomber vertebral füzyon eşlik eder. Tip 2 otozomal dominant diğerleri otozomal resesif geçer. Tip 2'de iskelet sistem belirtileri daha fazla iken Tip 1 ve 3 de daha ağır seyreder [7-10]. Bizim olgumuzda mevcut bulgular ile Tip 1 KFS düşündüldü.

Ayna hayali hareketi oluşumunu açıklayan alternatif hipotez ise KFS ve Kallman sendromunda görüldüğü gibi ipsilateral kortikospinal traktın anormal gelişimidir [10-14]. Mayston ve arkadaşları [11] X'e bağlı 13 Kallmann sendromu olgusunun yer aldığı çalışmalarında, manyetik stimülasyon ile iki taraflı üst ekstremitelerde distalde benzer motor uyarılmış potansiyel yanıtı elde etmiştir. Bu ve benzer veriler ipsilateral kortikospinal traktın anormal gelişimi sonucu ayna hayali hareketi oluştuğunu göstermiştir [11,14]. KFS ile birliktelik gösteren ikinci olgumuzun ayna hareketi yukarıda anlatılan alternatif hipotez mekanizması ile açıklanabilir.

Sonuç olarak öykü ve fizik muayene bulguları ile ayna hayali hareketi tanısına ulaşmak kolaydır. Eşlik eden klinik bulguları dikkate alarak çeşitli hastalık ve sendromlar araştırılmalıdır. Ayna hayali hareketi için çoğunlukla tedavi gerekli değildir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

- Müller K, Kass-Iliyya F, Reitz M. Ontogeny of ipsilateral corticospinal projections: a developmental study with transcranial magnetic stimulation. *Ann Neurol*. 1997 ;42(5):705-11.
- Balbi P, Trojano L, Ragno M, Perretti A, Santoro L. Patterns of motor control reorganization in a patient with mirror movements. *Clin Neurophysiol*. 2000 ;111(2):318-25.
- Kanouchi T, Yokota T, Isa F, Ishii K, Senda M. Role of the ipsilateral motor cortex in mirror movements. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1997 ;62(6):629-32.
- Whittle IR, Besser M. Congenital neural abnormalities presenting with mirror movements in a patient with Klippel-Feil syndrome. Case report. *J Neurosurg*. 1983;59(5):891-4.
- Krams M, Quinton R, Ashburner J, Friston KJ, Frackowiak RS, Bouloux PM, Passingham RE. Kallmann's syndrome: mirror movements associated with bilateral corticospinal tract hypertrophy. *Neurology*. 1999 ;52(4):816-22.
- Erdoğan P. Cervical cord tethering and congenital mirror movements: is it an association rather than a coincidence? *Br J Neurosurg*. 2002 ;16(5):519-22.
- Güner S, Şahan M.H, Ceylan M.F, Dönmez F.Y, Şirikçi A. Ensekte Kitle Görünümü Oluşturan Bir Klippel Feil Sendromu Olgusu. *J Clin Anal Med* 2013;4(3): 236-8.
- Aysun S. Ayna Hayali Hareketler. *Türkiye Klinikleri J Pediatr Sci*. 2006;2 (8):35-6.
- Karasick D, Schweitzer ME, Vaccaro AR. The traumatized cervical spine in Klippel-Feil syndrome: imaging features. *AJR Am J Roentgenol*. 1998;170(1):85-8.
- Mayston MJ, Harrison LM, Quinton R, Stephens JA, Krams M, Bouloux PM. Mirror movements in X-linked Kallmann's syndrome. I. A neurophysiological study. *Brain*. 1997 ;120 (7):1199-216.
- Gayır R, Umay E, Ünlü E, Demir Ş, Çakıcı A. Diastematomyeli ve Klippel-Feil Sendromu Birlikteliği: Bir Olgu Sunumu. *J Clin Anal Med* 2011;2(1):40-2.
- Güner S, Şahan M.H, Ceylan M.F, Dönmez F.Y, Şirikçi A. Ensekte Kitle Görünümü Oluşturan Bir Klippel Feil Sendromu Olgusu. *J Clin Anal Med* 2013;4(3): 236-8.
- Aysun S. Ayna Hayali Hareketler. *Türkiye Klinikleri J Pediatr Sci*. 2006;2 (8):35-6.

How to cite this article:

Canpolat M, Çelik İ, Doganay S, Gumus H, Per H. Mirror Movement in an Isolated Case and in a Case with Klippel-Feil Syndrome. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 184-6.



A Rare Fracture That Ottawa Ankle Rules are Insufficient: Isolated Posterior Malleolar Fracture

Ottawa Kriterlerinin Yetersiz Kaldığı Nadir Bir Kırık: İzole Posterior Malleol Kırığı

İzole Posterior Malleol / Isolated Posterior Malleolar Fracture

Bülent Karslıoğlu¹, Yusuf Emrah Eyi², Salim Kemal Tuncer², Yusuf Erdem³, Ali Osman Yıldırım⁴

¹Kasımpaşa Asker Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, İstanbul, ²GATA Askeri Tıp Fakültesi, Acil Tıp AD. Ankara, ³GATA Askeri Tıp Fakültesi, Ortopedi ve Travmatoloji AD. Ankara, ⁴GATA HEH, Acil Servis Şefliği, İstanbul, Türkiye

Özet

İzole posterior malleol kırığı ayak bilek kırıkları arasında oldukça nadir görülen bir kırıktır. 23 yaşında erkek hasta yüksekten düşme sonrası başlayan ayak bilek ağrısı nedeni ile acil servise başvurdu. Bilgisayarlı tomografide posterior malleolde kırık hattı izlenen hastaya, kırığın eklem hattının %25'inden azını içermesinden dolayı konservatif tedavi planlanarak diz altı alçı uygulandı ve 6. haftada rehabilitasyona başlandı. İzole posterior malleol kırığı tanısı farklı travma mekanizmasıyla oluşması nedeniyle Ottawa kriterleri ile her zaman konulamaz. Bu sebeple uyumsuz klinik bulgusu olan, ayak bilek travması geçirmiş hastalarda izole posterior malleol kırığı akılda tutulmalıdır.

Anahtar Kelimeler

Ayak Bileği; Kırık; Posterior Malleol; Ottawa Ayak Bileği Kuralları

Abstract

Isolated fracture of the posterior malleolus is rare. A 23 year- old male patient admitted to our emergency department suffering from ankle pain after fall. Computed tomography revealed fracture line at posterior malleolus. As well as it encompasses less than 25% of the joint surface, conservative treatment planned and below-knee cast was applied. Physical therapy was started at six week later. Due to different mechanism of occurrence it is hard to diagnose isolated posterior malleolus fracture by means of Ottawa ankle rules. Thus when clinical manifestation is incompatible with radiologic appearance, diagnose of isolated posterior malleolus fracture should be kept in mind.

Keywords

Ankle; Fracture; Posterior Malleolus; Ottawa Ankle Rules

DOI: 10.4328/JCAM.2131

Received: 03.11.2013 Accepted: 16.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 187-9

Corresponding Author: Bülent Karslıoğlu, Kasımpaşa Military Hospital, Dept. of Orthopaedics and Traumatology, 34440, İstanbul, Turkey.

GSM: +905058106373 E-Mail: bukars@gmail.com

Introduction

Trauma, the health problem that affects especially the young population, holds an important place in the admission to the emergency services [1,2]. Ankle injuries are one of the common injuries during sport activities. Although ankle sprains are certainly the most common injuries, ankle injuries are the lower limb fracture to present more frequently. Ankle fractures are seen with an incidence of 1-2 per 1000 persons per year in emergency departments. Coincidence of fracture of posterior malleolus and injuries of ligaments and the other types of fractures of ankle is frequently seen. Isolated fracture of posterior malleolus has a reportedly low incidence [3]. Although having low incidence, in case of diagnostic failure, due to leading towards chronic ankle problems, this case highlights the importance of diagnosing isolated posterior malleolar fracture needs more attention.

Case Report

A 23 year old male limping and suffering from right ankle pain due to landing from a 2-3 meters high structure admitted to emergency department (ED). On detailed questioning, he reported that he had landed on his right foot, which was immediately folded beneath him due to failure of keeping balance. Visual inspection of the right ankle and foot revealed no significant edema and deformity. According to Ottawa ankle rules, he had no tenderness at the medial or lateral malleoli and no pain on metatarsi. Moreover there was no sign of injuries of deltoid and lateral collateral ligaments. Fibular compression test evidencing proximal fibular injury was negative. Active range of motion and passive range of motion was full.

Initially there was a low suspicion of fracture, because the typical applications of Ottawa Ankle Rules were negative, as he could ambulate with low pain, no tenderness to palpation at the malleoli. Due to incompatibility of clinical manifestation and ankle pain, radiographs of patient were ordered. Radiographs confirmed the presence of an isolated posterior malleolar fracture encompassing less than 25% of the joint surface [Figure 1]. There was no evidence of fracture relevant with distal or proximal fibula. Computed tomography was immediately ordered for further evaluation to rule out any other injuries. Computed tomography revealed no other pathology except posterior malleolar fracture [Figure 2]. Fracture was reviewed to be stable due to having no concomitant injuries, being non-displaced fracture and encompassing less than 25% of the joint surface. The patient was placed in a non-weight bearing below-knee cast. The patient was encouraged for progressive weight bearing gradually once the cast was removed. Healing of the fracture was noted on radiographs taken 2 months later.

Discussion

Ankle fractures are vital importance because of needing prolonged immobilization, causing to withdraw from social life and causing chronic pain due to fracture involving joint. Ankle fractures may occur in different types due to trauma type, quality of bone, history of ankle fracture and position of ankle at impact. Ankle fractures account for 3.92 % of the entire body fractures. Roughly 7-44 % of ankle joint fractures are accompanied by posterior malleolar fractures which are rarely seen alone. The



Figure 1. Isolated posterior malleolar fracture on the lateral view

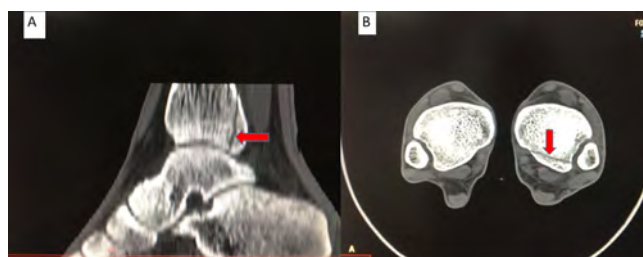


Figure 2. Isolated posterior malleolar fracture on the lateral [Figure 2A] view and transvers [Figure 2B] view of Computerized Tomographic evaluation of the lower leg

integrity of the posterior malleolus and its ligamentous attachment has vital importance for tibiotalar load transfer, posterior talar stability, and rotatory ankle stability [4].

There are many classifications related with ankle fractures. Classification based on clinical or radiological criteria is important in terms of definition of the fracture, orientation of treatment and evaluation of treatment outcomes. The most widely accepted classification system in clinical use for this purpose is the classification of Henderson [5]. In this system, ankle fractures are typically classified as unimalleolar (isolated internal or external or anterior or posterior), bimalleolar (concomitant fractures of internal and external malleoli) and trimalleolar (concomitant fractures of internal, external and posterior malleoli).

80-95% of patients presenting to EDs with ankle injuries received X-rays even though only 15% of the patients offered X-rays have bony pathologies [6]. The Ottawa Ankle Rules (OARs) as a method of physical examination were developed to decrease cost of ordering extraneous radiographs while reducing the risk of missing fractures of the ankle. After assessment

based on the OARs, ordering extraneous radiographs reduces by 28% [7]. Although having high sensitivity, the OARs have a specificity of 10-79% varying over a wide range. Tenderness to palpation of the posterior edge or tip of either malleoli (palpating 6 cm proximally) and/or inability to fully weight bear at least 4 steps are the indications for ordering X-rays [8]. But unfortunately, OARs fall short of suspected posterior malleolar fracture. Thus when clinical manifestation is incompatible with radiologic assay (AP, lateral and mortis), diagnose of isolated posterior malleolus fracture should be kept in mind. While the findings of plain radiographs did not indicate that a fracture was likely in patients with clinically suspected fracture, additional imaging methods should be ordered. Besides, 50 degrees of external rotation radiographs can give an idea of fracture [4]. CT scan is of greater value in case of suspected fracture.

Posterolateral tibial lip of ankle is known as Volkmann's triangle. Fractures of this site is named as posterior malleolar fractures. Roughly 7-44 % of ankle joint fractures are accompanied by posterior malleolar fractures which are rarely seen alone [9]. Although supination and external rotation mechanism causes isolated posterior malleolar fractures according to classification of Lauge-Hansen; Michelson could not produce isolated posterior malleolar fracture by means of the mechanism described by Lauge-Hansen from cadaver studies [10]. According to literature, a common mechanism of injury for posterior malleolar fractures includes plantar hyperflexion of the foot combined with an axial load such as may occur with slipping or falling [11]. Fractures occur due to imbalance between tensile strength of posterior inferior tibiofibular ligament and compression force of the dome of the talus. The size and stability of posterior segment, congruency of joint surface and posterior talar subluxation is important in deciding the treatment of fractures of posterior malleolar fracture. Internal fixation is recommended when the posterior malleolar fragment constitutes more than 25% of the tibiotalar joint surface [12]. Posterior talar subluxation is commonly seen in bimalleolar or trimalleolar fractures. Arrangement of the other fractures also corrects posterior talar subluxation by means of ligamentotaxis [13]. In our case, the patient was placed in a non-weight bearing below-knee cast and surgical treatment was avoided due to having no concomitant injuries, being non-displaced fracture and encompassing less than 25% of the joint surface.

As a conclusion, isolated posterior malleolar fractures are fairly rare entities due to specific mechanism occurrence. Despite the success in facilitating the diagnosis of ankle fractures, the OARs demonstrate failure in ruling out certain ankle fractures such as isolated posterior malleolar fractures due to not having specific rules for posterior malleolar fractures, ultimately causes misdiagnosing the posterior malleolar fractures and lead to pain and degenerative changes. Suspect of malleolar fracture is the first step in the diagnose of posterior malleolar fracture.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Durdu T, Kavalcı C, Yılmaz F, Yılmaz MS, Karakılıç ME, Arslan ED, Ceyhan MA. Acil Servisimize Başvuran Travma Vakalarının Analizi. J Clin Anal Med MAY 2014. doi: 10.4328/JCAM.1279.
2. Şen Tanırkulu C, Tanırkulu Y, Karaman S. Acil Servis Başvurularının ve Acil Servisten Yatırılan Hastaların Gözden Geçirilmesi: Bir Eğitim Hastanesinin Kesitsel Analizi. J Clin Anal Med 2014;5(2): 130-4.
3. Salai M, Dudkiewicz I, Novikov I, Amit Y, Chechick A. The epidemic of ankle fractures in the elderly--is surgical treatment warranted? Archives of orthopaedic and trauma surgery. 2000;120(9):511-3.
4. Irwin TA, Lien J, Kadakia AR. Posterior malleolus fracture. The Journal of the American Academy of Orthopaedic Surgeons. 2013;21(1):32-40.
5. Henderson M; Stuck W. Fractures of the Ankle: Recent and Old. The Journal of Bone & Joint Surgery. 1933 15(4):882-8.
6. Sujitkumar P, Hadfield JM, Yates DW. Sprain or Fracture? An Analysis of 2000 Ankle injuries. Archives of Emergency Medicine. 1986;3(2):101-6.
7. Bessen T, Clark R, Shakib S, Hughes G. A multifaceted strategy for implementation of the Ottawa ankle rules in two emergency departments. BMJ. 2009;339:b3056. doi:10.1136/bmj.b3056
8. Tayeb R. Diagnostic value of Ottawa ankle rules: simple guidelines with high sensitivity. British journal of sports medicine. 2013;47(10):e3. doi:10.1136/bjsports-2013-092558.71
9. Neumaier Probst E, Maas R, Meenen NM. Isolated fracture of the posterolateral tibial lip (Volkmann's triangle). Acta Radiol. 1997;38(3):359-62.
10. Michelson J, Solocoff D, Waldman B, Kendell K, Ahn U. Ankle fractures. The Lauge-Hansen classification revisited. Clinical orthopaedics and related research. 1997(345):198-205.
11. Miller JM, Svoboda SJ, Gerber JP. Diagnosis of an isolated posterior malleolar fracture in a young female military cadet: a resident case report. International journal of sports physical therapy. 2012;7(2):167-72.
12. van den Bekerom MP, Haverkamp D, Kloen P. Biomechanical and clinical evaluation of posterior malleolar fractures. A systematic review of the literature. The Journal of trauma. 2009;66(1):279-84. doi:10.1097/TA.0b013e318187eb16.
13. Akalin Y, İmerci A, Sürer L, Canbek U, Savran A. İzole Medial Subtalar Joint Dislocation: Case Report and Literature Review. J Clin Anal Med Published Online: 07.08.2012 doi: 10.4328/JCAM.1227

How to cite this article:

Karslıoğlu B, Eyi YE, Tuncer SK, Erdem Y, Yıldırım AO. A Rare Fracture That Ottawa Ankle Rules are Insufficient: Isolated Posterior Malleolar Fracture. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 187-9.



Restrictive Cardiomyopathy in Childhood: Case Report

Çocukluk Döneminde Ortaya Çıkan Restriktif Kardiyomiyopati: Olgu Sunumu

Restriktif Kardiyomiyopati / Restrictive Cardiomyopathy

Osman Güvenç¹, Derya Arslan¹, Derya Çimen¹, Mustafa Koplay², Bülent Oran²
¹Çocuk Kardiyoloji Bilim Dalı, ²Radyoloji Anabilim Dalı
Selçuk Üniversitesi Tıp Fakültesi, Konya Türkiye

Özet

Restriktif kardiyomiyopati, çocuklarda nadir görülen bir kardiyomiyopatidir. Belirgin bir sistolik fonksiyon bozukluğu veya ventriküler genişleme olmadan diyastolik fonksiyon bozukluğu gelişmesidir. Klinikte sağ kalp yetmezliği bulguları, tromboemboli ve aritmiler görülebilir. Bu makalede, kalp yetmezliği bulgularıyla gelen ve restriktif kardiyomiyopati tanısı konulan 15 yaşındaki hasta olgu sunumu yapıldı.

Anahtar Kelimeler

Restriktif Kardiyomiyopati; Çocukluk Dönemi; Diyastolik Fonksiyon Bozukluğu

Abstract

Restrictive cardiomyopathy is quite rare in childhood. The disease is characterized by diastolic dysfunction without systolic dysfunction or ventricular dilatation. Right heart failure signs, thromboembolism and cardiac arrhythmia can be seen in clinic presentation. In this case report, a 15 year-old patient who had heart failure signs was diagnosed with restrictive cardiomyopathy.

Keywords

Restrictive Cardiomyopathy; Childhood; Diastolic Dysfunction

DOI: 10.4328/JCAM.2140

Received: 08.11.2013 Accepted: 17.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 190-3

Corresponding Author: Osman Güvenç, Selçuk Üniversitesi Tıp Fakültesi, Çocuk Kardiyoloji Bölümü, Alaaddin Keykubat Kampüsü 42075 Selçuklu, Konya, Türkiye.
T.: +90 3322415000/44510 F.: +90 3323236723 GSM: +905055013646 E-Mail: osmanguvenc1977@gmail.com

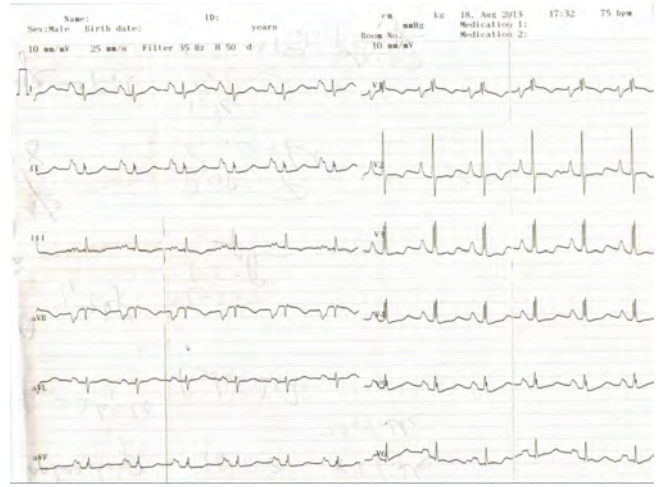
Giriş

Restriktif kardiyomiyopati (RKMP), çocuklarda son derece nadir görülen bir kalp kası hastalığıdır. Bu hastalıkta ventriküler dilatasyon veya sistolik fonksiyon bozukluğu olmadan diyastolik fonksiyonlarda kayıp ve sağ kalp yetmezliği bulguları olur. İdiyopatik olabileceği gibi birçok sebebe bağlı da gelişebilir. Hastalarda kalp yetmezliğinin yanında tromboembolik hadiseler ve çeşitli aritmiler görülebilir (1-3). Konstrikatif perikarditle ayırıcı tanısının yapılması çok önemlidir (3). Bu makalede, çocuk kardiyoloji polikliniğine sağ kalp yetmezliği bulgularıyla gelen ve RKMP tanısı konulan hastayı olgu sunumu yaparak, seyrek görülen bu hastalığı hatırlatmak istedik.

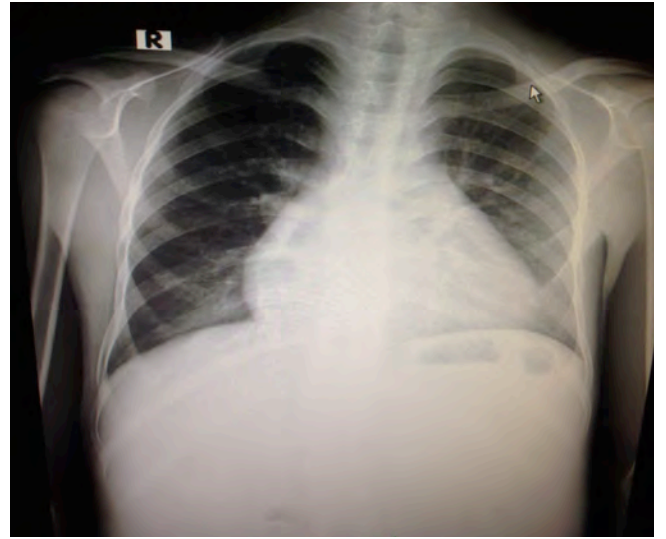
Olgu Sunumu

İki yıldır çabuk yorulma, halsizlik, nefes darlığı ve çarpıntı şikayetleri olan 15 yaşındaki kız hastanın son üç aydır bu şikayetlerinde artış olmuş. Bir yıldır karnında şişkinlik ve karın ağrılarını şikayeti de varmış. Hastanın yorulunca göğüs ağrısı oluyormuş ve dinlenmekle 10-15 dakika içinde kendiliğinden geçiyormuş. Bayılması olmamış. Özgeçmişi ve soygeçmişi sorgulandığında akraba evliliği veya ailede benzer hastalık hikayesi yoktu. Hastanın çocuk kardiyoloji polikliniğinde yapılan fizik muayenesinde genel durumu iyi, bilinci açık idi, kan basıncı 100/60 mmHg, kalp hızı 82 /dakika, solunum sayısı 24 /dakika, vücut ısı 36,8 C° olarak tespit edildi. Kardiyak muayenesinde, prekordiyumda her odakta duyulabilen pansistolik karakterli 2/6 şiddetinde üfürümü vardı, solunum sesleri doğaldı, batını distandü olan hastada perküsyonda asit ile uyumlu matite tespit edildi, karaciğer kot altında 2-3 cm ele geliyordu ve dalak nonpalpabl idi. Boyun ven dolgunluğu yoktu. Elektrokardiyografik incelemede (EKG), kalp hızı 75 /dakika olan normal sinüs ritmi vardı. P dalgaları biatriyal genişlemeyle uyumlu olarak geniş ve derin idi, yaygın olarak RsR paterni görüldü (Resim 1). Tele'sinde kardiyotorasik oranı 0.6 olarak ölçüldü, pulmoner konjesyon veya perikardiyal kalsifikasyon yoktu (Resim 2). Ekokardiyografik değerlendirmede (EKO) sağ ve sol atriyum, koroner sinüs ve vena kava inferior (İVK) genişti, İVK'nin çapında solunumsal fazda olması gereken değişiklik azalmıştı. En derin yerinde 15 mm olarak ölçülen perikardiyal efüzyon vardı, ikinci derece mitral ve triküspid yetersizliği tespit edildi, pulmoner hipertansiyon bulguları veya trombüs yoktu. Perikardiyal kalınlaşma yoktu. (Resim 3). Ventrikül duvarında kalınlaşma veya kapak yapısında anormallik görülmedi. Doppler EKO incelemede mitral kapak E akım hızı artmış, A akım hızı azalmış, deselerasyon zamanı kısalmış ve E/A oranı artmış olarak tespit edildi ve bu bulgular restriktif doluş paterni ile uyumlu olarak kabul edildi. Batın ultrasonografisinde batında yaygın asit ve hepatomegali olduğu, İVK ve hepatic venlerin belirgin dilate olduğu izlendi.

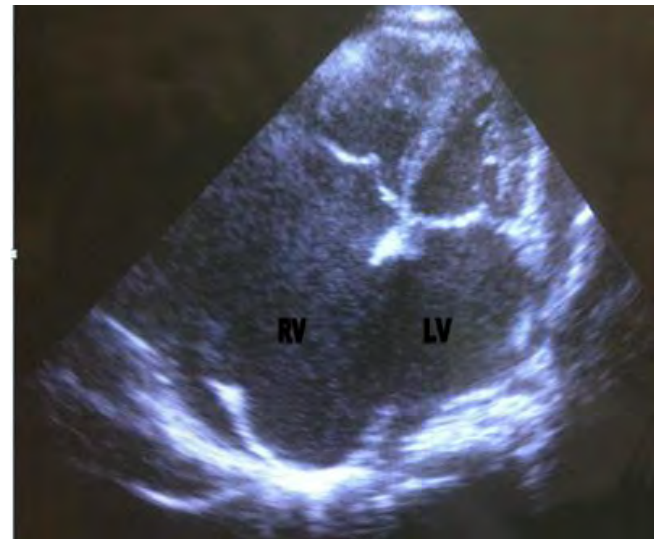
Bu klinik ve laboratuvar bulgularıyla hastanın RKMP veya konstrikatif perikardit olabileceği düşünüldü. Bu iki hastalığın ayırımının yapılabilmesi için hastanın anamnezi, fizik muayenesi, laboratuvar ve radyolojik tetkikleri tekrar değerlendirildi. Hastada veya ailesinde geçirilmiş tüberküloz öyküsü yoktu. Hastadan, daha önce olan bir kalp cerrahisi, kalp travması veya akut perikardit ile ilgili anamnez alınmadı. Fizik muayenede atriyoventriküler kapak yetmezliklerine bağlı olduğu düşünülen sistolik üfürüm duyulması, ekokardiyografik incelemede de mitral ve triküspit yetmezlik tespit edilmesi RKMP lehine bulgular olarak de-



Resim 1. Hastanın EKG'sinde biatriyal hipertrofi bulguları.

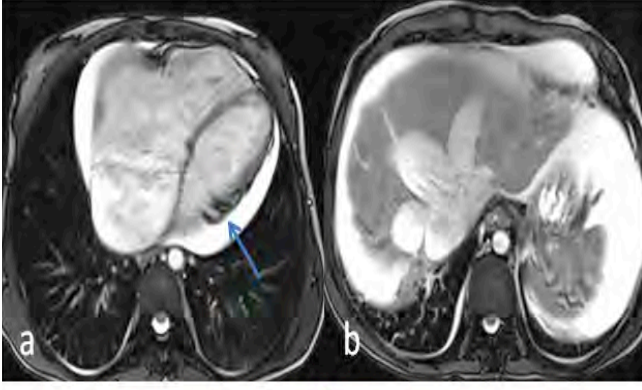


Resim 2. Hastanın Tele filmi kardiomegali olduğu görülmektedir.

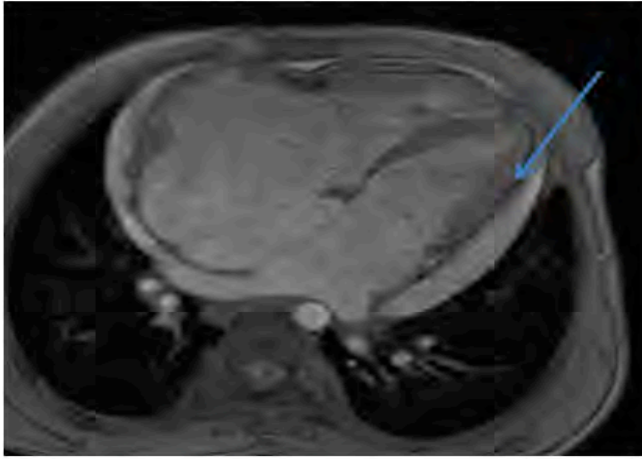


Resim 3. Hastanın EKO görüntüsünde ileri derecede geniş sağ ve sol atriyum. RA: Sağ atriyum LA: Sol atriyum

ğerlendirildi. Konstrikatif perikarditle ayırımı için kardiyak manyetik rezonans görüntüleme (MR) yapıldı, perikard kalınlığının normal olduğu ve kalsifikasyon bulunmadığı görüldü, RKMP ile uyumlu bulgular izlendi (Resim 4-5). Hastada hemodinamik değerlendirme veya ek anomalilerin görülmesi için kardiyak kateterizasyon yapılmasına gerek görülmedi.



Resim 4. Aksiyel T2 A görüntülerde sağ atriyumda, vena kava inferiorde, hepatic venlerde genişleme ve perikardiyal efüzyon (ok) ile batında serbest mayii izlenmektedir.



Resim 5. Aksiyel T2 A görüntüde perikardiyal efüzyon ve normal perikard kalınlığı (ok) izlenmektedir.

Hasta servise yatırıldı, diüretik ve kalsiyum kanal blokörü ile antiagregan dozda asetilsalisilik asit tedavisi başlandı. Hemogram, eozinofil sayısı, sedimentasyon, rutin biyokimya değerleri, serum glikozu, tiroid fonksiyon testleri, demir ve ferritin değerleri normal sınırlarda idi, idrarda redüktan madde, aside dirençli basil araması ve tüberküloz tetkikleri negatifti. Hastalık ailesel olabileceği için hastanın kardeşleri, annesi ve babası EKO ile değerlendirildi ve normal oldukları görüldü. Hastalığın sekonder bir nedene bağlı olmadığı düşünüldü ve olgu idiyopatik RKMP kabul edildi.

Tartışma

İdiyopatik RKMP, çocuklarda en seyrek görülen kardiyomiyopati türüdür (1-3). Ventriküllerin sistolik fonksiyonları normalken, diyastolik fonksiyonların bozulması sonucu ventrikülün diyastol sonu basıncının yükselmesi ve diyastol sonu volümün azalması ile karakterizedir. Bir veya iki ventrikülü tutabilir (1-2) Hastalığın amiloidoz, sarkoidoz, skleroderma, hemokromatozis, metabolik hastalıklar (Hurler, Fabry hastalığı gibi), hipereozinofilik sendrom, radyoterapi ve kemoterapi gibi birçok sebebi olabileceği gibi idiyopatik ve ailesel olarakta görülebilmektedir (1-4).

Hastalarda sağ ve/veya sol kalp yetmezliği bulguları oluşur. Bizim hastamızda sağ kalp yetmezliği bulguları vardı. Bu hastalar senkop veya ani ölüm şikayetiyle başvurulabilir. Ekokardiyografik incelemede ventriküler dilatasyon veya sistolik fonksiyon bo-

zukluğu olmadan restriktif doluş paterni ve belirgin biatriyal genişleme vardır (1-3). Vena kava inferiorde ve hepatic vende genişleme ve solunumsal çap değişikliğinde azalma olur. Diyastolde interventriküler septumda sıçrama şeklinde anormal hareket izlenebilir (1,3). Doku Doppler incelemede mitral kapak E akım hızı artmış, deselerasyon zamanı kısalmış ve E/A oranı artmış olarak tespit edilir. Duvar kalınlıklarında artma ve kapaklarda kalınlaşma, RKMP hastalığında, özellikle de nedeni amiloidoz hastalığı olduğunda görülebilir. (1-3). Hastamızda da her iki atriyumda belirgin dilatasyon, her iki atriyoventriküler kapakta yetmezlik, vena kava inferior, hepatic ven ve koroner sinüste genişleme, vena kava inferiorun solunumsal çap değişikliğinde azalma ile restriktif patern ile uyumlu doku doppler bulguları görüldü, hastanın kardiyak duvar kalınlıkları ve kapakları normaldi, perikardiyal kalınlaşma yoktu.

Dilate kardiyomiyopati ve sol ventrikül noncompaction gibi kalp kası hastalıklarında olduğu gibi RKMP'de de atriyumlardaki genişlemeye ve staza bağlı olarak tromboembolik hadiseler izlenebilir. Tromboz genelde atriyum apendikslerinde oluşmaktadır. Hastanın EKO incelemesinde atriyal trombüs varlığının özellikle araştırılması gerekmektedir (5-6). Bizim hastamızda trombüs tespit edilmedi ve profilaktik olarak antiagregan dozda asetilsalisilik asit başlandı.

Hastalarda atriyal fibrilasyon ve diğer supraventriküler taşikardiler ile AV blok gibi ritim ve iletim bozuklukları da oluşabilmektedir (1). Olgumuzda EKG ve 24 saatlik holter incelemesinde herhangi bir aritmi görülmüdü.

Hastalığın kesin bir tedavisi yoktur, prognozu kötüdür, destekleyici tedaviler verilir. Diüretikler, kalsiyum kanal blokörleri, antitrombotik ve antiaritmik ilaçlar kullanılabilir (1-2). Cerrahi tedavi kalp nakli ile sınırlıdır (7).

Hastalığın, tedavi edilebilir bir durum olan konstriktif perikardite ayırıcı tanısının yapılması çok önemlidir. İki hastalık, klinik ve laboratuvar bulguları olarak kolayca karışabilir (3). Hastamızda konstrüktif perikardite neden olabilecek tüberküloz, kalp cerrahisi veya travması ile akut perikardit öyküsü yoktu. Fizik muayenede erken diyastolde perikardiyal

knock sesi konstriktif perikardit tanısını destekler (1,3), bizim olgumuzda bu ses duyulmadı. Hastamızda atriyoventriküler kapakların yetmezliğine bağlı sistolik üfürümün duyulması ve EKO incelemesinde mitral ve triküspit yetmezliğin görülmesi RKMP tanısı lehine bulgulardır. İki hastalığın ayırıcı tanısı yapılırken EKO değerlendirilmesinde hepatic venin diyastolik geri akımı değerli bilgiler verebilir: Diyastolik geri akım inspiryumda belirginleşiyorsa RKMP, ekspiryumda belirginleşiyorsa konstrüktif perikardit lehinedir (1,3). Birbirine çok benzeyen ve tedavi yaklaşımları tamamen farklı olan bu iki hastalığın ayırd edilebilmesi için artık MR ve bilgisayarlı tomografi (BT) sık olarak kullanılmaktadır (3). Konstriktif perikardit hastalığında genellikle artmış perikardiyal kalınlık mevcuttur (1,3). Perikard kalınlığını değerlendirmek için MR ve BT kullanılabilir, BT'de en az üç mm, MR'da en az dört mm perikard kalınlığının olması konstriktif perikardit tanısını desteklerken perikard kalınlığının normal olması konstriktif perikardit tanısını dışlamaz (3). Hastamızda kontriktif perikardit olmadığı, perikard kalınlığının normal olduğu (2 mm) ve kalsifikasyon olmadığı MR ile gösterilmiştir. Eğer iki hastalığın ayırıcı tanısı yapılamazsa, ayrıca ek anomalilerin değerlendirilmesi ve etyolojik nedene yönelik olarak endomiyokardiyal biyopsi yap-

mak için kalp kateterizasyonu gerekebilir (1,3). Konstriktif perikarditte kalp boşluklarının diyastolik basınçlarında eşitlenme beklenir ve bu eşitlenme insprasyonda daha belirgindir. Kateterizasyon ile RKMP hastalığında sol ventrikül diyastol sonu basıncının, sağ ventrikül diyastol sonu basıncından 5 mm Hg yüksek olduğu görülür, pulmoner arter ve sağ ventrikül sistolik basıncı genellikle 50 mm Hg'den fazladır. Konstrüktif perikardit hastalığında ise iki ventrikülün diyastol sonu basıncı eşittir, sağ ventrikül sistolik basıncı 50 mm Hg'nin altındadır (3). Bizim olgumuzda RKMP tanısında bir şüphe olmadığı ve EKO incelemesinde ek anomali görülmediği için anjiyografik değerlendirmeye gerek duyulmadı.

Sonuç olarak RKMP; çocuklarda nadir görülen, kesin bir tedavisi olmayan, tek yararlı tedavinin kalp nakli olduğu bir hastalıktır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

- Özkutlu S, Karagöz T. Restriktif kardiyomiyopati. Katkı Pediatri Dergisi 2001;22(1):51-63.
- Çil E, Özkutlu S, Saraçlar M, Kale G. Çocuklarda restriktif kardiyomiyopati: 12 vakanın klinikopatolojik incelemesi. Türk Kardiol Der Arş 1995;23:123-7.
- Zwas DR, Gotsman I, Admon D, Keren A. Advances in the differentiation of constrictive pericarditis and restrictive cardiomyopathy. Herz 2012;37:664-74.
- Lipshultz SE, Sleeper LA, Towbin JA, Lowe AM, Orav J, Cox GF, et al. The Incidence of Pediatric Cardiomyopathy in Two Regions of the United States. N Engl J Med 2003;348:1647-55.
- Kai C, William S, Chan A, Mondal TK. Thrombosis and embolism in pediatric cardiomyopathy. Blood Coagulation & Fibrinolysis 2013;24(3):221-30.
- Hacıhamdioğlu B, Balamtekin N, Yozgat Y, Sarıcı SÜ, Okutan V, Kürekçi AE, ve ark. Sağ atriyal dev trombus ile komplike restriktif kardiyomiyopati: bir olgu sunumu. Gülhane Tıp Dergisi 2006;48:241-3.
- Eren E, Güler M, Ömeroğlu SN, Göksedef D, Alp M, Yakut C. Ailevi Restriktif Kardiyomiyopatili Hastada Ortotopik Kalp Transplantasyonu: Olgu Sunumu. Turkish J Thorac Cardiovasc Surg 2004;12:188-90.

How to cite this article:

Güvenç O, Arslan D, Çimen D, Koplay M, Oran B. Restrictive Cardiomyopathy in Childhood: Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 190-3.



Munchausen Syndrome: A Case with Presenting Sudden Hearing Loss

Munchausen Sendromu: Ani İşitme Kaybı ile Başvuran İki Hasta

Munchausen Sendromu / Munchausen Syndrome

Murat Ozturk, Fatih Sari, Selvet Erdogan, Fatih Mutlu
Kocaeli Üniversitesi Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, Kocaeli, Türkiye

Özet

Munchausen sendromu hastaların akla uygun sahte ve yapay şikayetlerini içeren bir psikiyatrik bozukluktur. Kulak burun boğaz kliniklerinde nadirdir. Bu yazıda ani işitme kaybı ve vertigo şikayetleri ile gelen, medical ve invaziv tedavi uygulanan bir olgu sunulmuştur. Munchausen sendromlu hastalar girişimsel tıbbi tedavileri kolayca kabul ederler ve oldukça inandırıcı olabilirler. Gereksiz tıbbi tedaviden kaçınmak için bu hastalık akılda tutulmalı ve tanısı konulmalıdır.

Anahtar Kelimeler

Munchausen Sendromu; İşitme Kaybı; Otoloji

Abstract

Munchausen syndrome is a psychiatric disorder that patients direct professionals with plausible, feigned, factitious symptoms. It's uncommon in otolaryngology clinics. We present a patient, complaint with sudden hearing loss and vertigo, and who underwent additional medical and invasive treatment in this paper. Patients with Munchausen syndrome allow invasive medical care easily, and they can be very convincing. It has to be diagnosed and kept in mind because of avoiding from unnecessary treatment.

Keywords

Munchausen Syndrome; Hearing Loss; Otolology

DOI: 10.4328/JCAM.2135

Received: 04.11.2013 Accepted: 20.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 194-5

Corresponding Author: Fatih Sari, Kocaeli Üniversitesi Tıp Fakültesi, KBB Anabilim Dalı, 41380 Umuttepe, Kocaeli, Turkey.

T.: +90 5325525881 F.: +90 2623038003 E-Mail: fatihsari84@hotmail.com

Introduction

Munchausen syndrome is a rare factitious disorder in which patients intentionally make up symptoms to pretend to be sick [1]. This syndrome is characterized by the patients acting sick, lying pathologically, and visiting multiple hospitals. The most encountered symptoms are facial pain or swelling and ear symptoms (otorrhea, external otitis etc.) in head and neck region. It's not usual to present with sudden sensorineural hearing loss (SSHL). In this article, we present a case with Munchausen syndrome that point out such patients for clinicians, and discuss how much they can exaggerate and tolerate invasive treatments.

Case Report

A 26-year-old female patient, admitted to our outpatient clinic with sudden hearing loss, tinnitus and vertigo for a day. Her past medical history was insignificant. Physical examination was normal. In audiologic tests, tympanometry showed bilaterally type A pattern; pure tone audiometric score was bilaterally 43 dB with sensorineural hearing loss for both ears. So she was evaluated as SSHL. The patient was hospitalized to perform SSHL treatment protocol. B vitamin, enoxaparin sodium, 400 mg pentoxifylline, 250 ml of 10% dextran 40 in 0,9 % NaCl, methylprednisolone (1mg/kg; decreasing dose), and 40 mg famotidine were ordered per a day. In addition, because of the young age of the patient, we started bilateral daily intratympanic dexamethasone applications.

In the follow-up period, routine blood tests show no abnormality excluding TSH:0,2 mIU/L (normal:0,34-4,53) and hemoglobin:10,6 g/dl (normal: 12,2-18,1). In third day, the hearing levels of the patient were 68 dB in the right ear and 77 dB in the left ear. In the same day, neurology consultation was made for weakness and losing sensitivity of right part of the patients body. No pathological findings were found in neurologic examination. Cranial MRI and temporal bone MRI performed, and they were normal too. Daily done audiologic evaluation was showing a regular increase in the hearing thresholds. Thus, at the fifth day, we planned to perform hyperbaric oxygen treatment, but we saw the patient's well communication with the other patients, and suspected from the hearing thresholds of her. An objective test defining for hearing levels, auditory brainstem response (ABR), agreed to be examined. In ABR, the hearing levels were normal in both ears, and the 5th waves were seen in 20 dB nHL. After this, a psychiatry consultation was done, and the patient was diagnosed as Munchausen Syndrome, and she and her family were informed about this situation.

Discussion

Munchausen syndrome is a rare fictitious disorder that characterized by the patients acting sick, lying pathologically and visiting multiple hospitals [1]. The American Pshyciatric Association has defined three criteria that must be met for the diagnosis of contrived disease: 1) the patient intentionally produces or feigns physical or psychological signs or symptoms 2) motivation for the behavior is to assume the sick role, and 3) external incentives for the behavior are absent [1]. Patients with Munchausen Syndrome can admit to Ear Nose Throat clinics with different entities [2]. Patients may admit with facial pain, swollen face, acute dyspnea, stridor, neck pain, increasing dysphagia, bloodstained saliva, recurrent facial swelling and emphysema, recurrent otorrhagia, and recurrent acute external otitis [2, 3, 4]. Salturk has reported an otological Munchausen syndrome with recurrent unilateral sensorineural hearing

loss [5]. Furthermore, patients can apply with sudden bilateral hearing loss such as current patient. As far as we know, this is the first reported Munchausen syndrome with bilateral sudden hearing loss case in the English medical literature.

Patients with Munchausen syndrome mostly have a near contact with medicine and they know lots of information about illnesses, recoveries, diagnoses, and treatments [5]. Thus, they can act like real patients, and give very coherent results in subjective tests. Our audiology department can usually determine simulating patients, but this patient showed very coherent results, she pressed the button of the audiometry device in very close thresholds, and our testers could not suspect from her. In addition, the patient showed a regular increase in her hearing thresholds day by day, which was made us think the disease is raising and should give more further treatment like hyperbaric oxygen. We could barely get the signs of the disease after five days in the patient. Here again, we want to emphasize that these kinds of patients can be very convincing, and sometimes it is very difficult to catch them.

In these patients, acoustic reflex test could be very helpful to suspect from the syndrome. A positive stapedius reflex in the patients who seems has excess sensorineural hearing loss could warn the physician to reevaluate the patient. In addition, when evaluating a SSHL patient, otolaryngologists could prefer to get the acoustic brainstem response of the patient. By this way, it will provide an objective assessment of the patient's hearing, and also if there is a delay on the acoustic brainstem waves, it will also help the diagnosis of a vestibular schwannoma before a radiologic imaging study.

If Munchausen syndrome is suspected, a psychiatrist who would possibly make a definite diagnosis should evaluate the patients. The psychiatrist in the treatment of the syndrome is to support the primary treatment team manages the patient in the safest and most appropriate way [2]. Furthermore, blacklisting can be made by hospital to call attention to differential diagnosis [6].

Conclusion

The otolaryngologist should be careful about long-lasting untreatable symptoms. The manipulation of conscious Munchausen Syndrome patient would cause gratuitous treatments from a medical drug to invasive procedures. This would waste money, time, and effort of health system and clinicians.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

- 1.American Psychiatric Association. Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders. 4th ed. Washington DC:American Psychiatric Asociation; 2000:471-5.
2. Alicandri-Ciuffelli M, Moretti V, Ruberto M, Monzani D, Chiarini L, Presutti L. Otolaryngology Fantastica: The Ear, Nose, and Throat Manifestations of Munchausen's Syndrome. *Laryngoscope* 2012; 122:51-57.
3. Oldham L. Facial pain as a presentation in Von Munchausen's syndrome: a case report. *Br J Oral Surg* 1974;12:86-90.
4. Patterson R, Schatz M, Horton M. Munchausen's stridor: non-organic laryngeal obstruction. *Clin Allergy* 1974;4:307-310.
- 5.Salturk Z, Topaloglu İ, Bertigen G, Dogan M O.Otological Munchausen's Syndrome:Recurrent Sensorineural Hearing Loss: Case Report.KBB ve BBC Dergisi 2012; 20:45-50.
- 6.Huffman JC, Stern TA. The diagnosis and treatment of Munchausen's syndrome. *Gen Hosp Psychiatry* 2003;25:358-363.

How to cite this article:

Ozturk M, Sari F, Erdogan S, Mutlu F. Munchausen Syndrome: A Case with Presenting Sudden Hearing Loss. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 194-5.



A Rare Combination Causing Fetal Demise: Isolated Single Umbilical Artery and Long Umbilical Cord

Fetal Ölüme Neden olan Nadir Bir Kombinasyon: İzole Tek Umbilikal Arter ve Uzun Umbilikal Kord

Çoklu Kord Anomalileri / Multiple Cord Abnormalities

Selen Dogan¹, Ozgur Ozyuncu², Gurkan Bozdogan²

¹Akdeniz University, Department of Obstetrics and Gynecology, Antalya,

²Hacettepe University, Department of Obstetrics and Gynecology, Ankara, Turkey

Özet

Gerçek düğümler nadir kord anomalileridir, ancak kord kazalarının önde gelen nedenleridir. Tek umbilikal arter ve uzun umbilikal kord gerçek düğüm ve nukhal kord oluşmasına yatkınlık yaratmaktadır. Biz bu vakada fetal etkilenmeye neden olabilen diğer kord anomalileri ile tek umbilikal arter arasındaki ilişkiyi göstermeyi amaçladık. Bu raporda tek umbilikal arter ve diğer kord anomalilerinin eşlik ettiği, fetal ölüme sonuçlanan bir gebelik vakası sunulmuştur. Doğum sonrası umbilikal kord uzunluğu üzerindeki dört gerçek düğümle beraber 167 cm ölçülmüştür. Bu bulgular gerçek düğümlerin fetal ölüm konusunda ciddi bir risk faktörü olduğunu ve tek umbilikal arter ve uzun umbilikal kord ile ilişkili olabileceğini vurgulamıştır. Bu nedenle detaylı ultrasonda tek umbilikal arter bir kez saptandığında diğer kord anomalilerinin saptanması ve kord kazalarından sakınılabilmesi için inceleme genişletilmelidir.

Anahtar Kelimeler

Fetal Ölüm; Uzun Umbilikal Kord; Nukhal Kord; Tek Umbilikal Arter; Gerçek Düğüm

Abstract

True knots are rare cord abnormalities but they are leading cause of cord accidents. Single umbilical artery and long umbilical cords exhibit a tendency to form true knots and nuchal cords. We aimed to show the association between single umbilical artery and other umbilical cord abnormalities which may lead to fetal compromise as in this case. We presented a pregnant women with intra-uterine fetal demise associated with isolated single umbilical artery and other cord abnormalities. After delivery, the length of umbilical cord was noted to be 167 cm with four true knots on it. Those findings once again emphasize that true knots are serious risk factors for fetal death and could be associated with single umbilical artery and long umbilical cord. Therefore once single umbilical artery is detected on detailed sonography, examination must be extended to rule out other cord abnormalities and avoid cord accidents.

Keywords

Fetal Demise; Long Umbilical Cord; Nuchal Cord; Single Umbilical Artery; True Knots

DOI: 10.4328/JCAM.2044

Received: 04.09.2013

Accepted: 21.11.2013

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 196-8

Corresponding Author: Selen Dogan, Akdeniz University, Faculty of Medicine Department of Obstetrics and Gynecology, Antalya, Turkey.

T.: +90 2422909425 E-Mail: drsalben@hotmail.com

Introduction

True knots and nuchal cords are the leading causes of cord accidents. The reported incidence of true knots range from 0.3 to 1.2%[1]. Umbilical cord abnormalities such as long umbilical cord (LUC) exhibit a tendency to form true knots and nuchal cords. There is also an association between LUC and non-reassuring fetal status, lower Apgar scores, and fetal demise[2]

Case Report

Thirty-one years old gravida 2 parity 1 woman admitted to our clinic with decreased fetal movements for several days at 38 weeks of gestation. Ultrasonographic examination revealed absent fetal cardiac activity with appropriate fetal measurements for its dates and normal amniotic fluid index. Antenatal follow up was unremarkable except isolated single umbilical artery without any associated malformations detected in second trimester detailed ultrasonography. Her laboratory results were all normal and her vital signs were within normal limits. After detection of absent cardiac activity labor induction was initiated. She delivered vaginally a 3180 gr male fetus. Baby was macerated with an umbilical cord measuring 167 cm (figure 1a). On gross examination the cord was edematous with one vein and one artery. There were also four true knots along the cord. Tightly coiled nuchal cord (three times) was also noted (figure 1b).

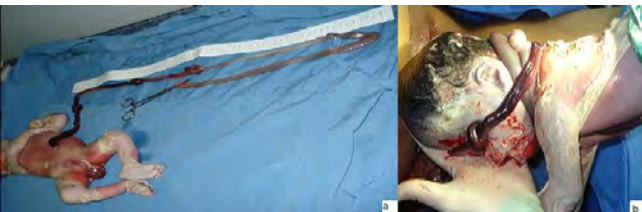


Figure 1. Macerated male fetus with long umbilical cord (167cm) and accompanying four true knots (A), Three times tightly coiled nuchal cords (B).

Discussion

Umbilical cord knots particularly true knots may represent a hazard to the fetus. Fetuses with true umbilical cord knots are more likely to have intrauterine growth restriction(IUGR) and have four fold increased risk of stillbirth, lower 1 minute Apgar scores, higher rate of meconium stained amnion and nonreassuring fetal heart rate patterns in antenatal period and also in the course of intrapartum period [1, 3, 4]. There are many reports demonstrating an association between cord complica-

tions and LUC particularly with true knots[5]. LUC also increases the risk of IUGR and associated with neonatal morbidities. Poor neurological outcome is another important complication of LUC which is related to cord complications or alteration of blood flow dynamics causing intrauterine hypoxia [2]. In a recent study by Rasionen male fetuses had longer umbilical cords than female fetuses. Moreover higher incidence of cord knots were observed in male gender. Also maternal age, multiparity, history of spontaneous abortion, polyhydramnios and diabetes mellitus were associated with cord knots [6]. Table 1 summarizes published reports regarding multiple cord anomalies and neonatal outcomes [7,8,9,10,11]. As seen, presence of LUC and SUA causes significant deterioration in heart rate patterns, an increase in rate of urgent cesarean sections and NICU admissions as well. In the review of Baergen et al about placental pathologies SUA was more likely to be associated with LUC [2]. Hence association of LUC and SUA might increase the risk of a possible cord accident. SUA carries relatively normal blood volume with respect to three vessel cord but to compensate this alteration vascular resistance and compliance decrease and consequently such an alteration in vascular resistance make the cord vessel vulnerable to compression[12,13].As a result of an absence of a second protective umbilical artery, compression of single umbilical artery may affect fetoplacental circulation more severely than a normally structured umbilical cord . SUA was blamed on the pathophysiology of sirenomelia with the same reason like hypoperfusion [14]. Besides detailed fetal ultrasonography to rule out major malformations additional umbilical cord abnormalities such as true knots or nuchal cords should be scanned particularly in third trimester. Fetuses with more than one umbilical cord anomalies should be closely followed up. There are only few studies regarding antenatal diagnosis and obstetrical outcomes of true knots. A significant number of ultrasonographic markers related to true knots have been defined such as ‘four leaf clover’ pattern, ‘hanging nose’ sign and ‘bizarre multicolored’ pattern[15,16]. But none of them has been shown to be specific [17]. However persistence of four leaf clover pattern all through the follow up examination should be use to support the diagnosis. If a true knot is suspected in antenatal ultrasonography, close follow up with umbilical artery Doppler velocimetry studies until term is warranted[17]. If there is no deterioration in fetal blood flow patterns there is no indication for delivery[18]. But in case

Table 1. Published studies regarding multiple cord anomalies and neonatal outcomes.

Author	Maternal Age	Parity	Fetal gender	Cord Abnormality	IUGR/SGA	NICU admission	Mode of delivery	Heart Rate Pattern	Apgar1 and 5 minute
Ugianskiene [7]	30	M	Female	SUA+LUC+4Knots	IUGR	+	Urgent C/S at 39w	diminished variability, absence of accelerations	5-10
Sirinivasan[8]	40	M	Male	LUC+4Knots	SGA	+	Vaginal	Prolonged bradycardia	8-9
Ogbonmwan[9]	27	N	Male	3Knots	IUGR	+	Urgent C/S at 28 w	Late decelerations, diminished variability, absence of accelerations	2-4
Ulm[10]	22	M	Female	2Knots	IUGR	+	Urgent C/S at 39 w	Mild variable decelerations	8-8
Jones[11]	24	M	Female	4Knots	AGA	-	Vaginal	No abnormality	9-10
Our case	31	M	Male	SUA+LUC+4Knots	AGA	-	Vaginal	Fetal Demise	0-0

M:Multipar, N:Nullipar, SUA: Single Umbilical Artery, LUC: Long Umbilical Cord, IUGR: Intrauterine Growth Retardation , SGA: Small for Gestational Age, AGA: Appropriate for Gestational Age, C/S: Cesarean section

of a significant IUGR with abnormal Doppler indices close follow up and timely delivery are warranted[5]. Regarding labor induction, continuous cardiotocography is highly recommended. [17].

Besides its rarity our case demonstrates a situation in which coexistence of multiple cord abnormalities led to poor obstetric outcome. Presence of one cord abnormality warrants detailed sonography to rule out other cord abnormalities.

In conclusion when a single umbilical artery is detected, it is important to rule out accompanying cord anomalies. In the presence of multiple cord anomalies fetal surveillance is indicated in order to avoid potential umbilical cord compression and cord accidents.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Airas, U. and S. Heinonen, Clinical significance of true umbilical knots: a population-based analysis. *Am J Perinatol.*, 2002. 19(3): p. 127-32.
2. Baergen, R.N., et al., Morbidity, mortality, and placental pathology in excessively long umbilical cords: retrospective study. *Pediatr Dev Pathol.*, 2001. 4(2): p. 144-53.
3. Hershkovitz, R., et al., Risk factors associated with true knots of the umbilical cord. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.*, 2001. 98(1): p. 36-9.
4. Chen, S.Z., et al., Fetal supraventricular tachycardia associated with a true knot of umbilical cord. *Asia Oceania J Obstet Gynaecol.*, 1987. 13(1): p. 69-74.
5. Tantbirojn, P., et al., Gross abnormalities of the umbilical cord: related placental histology and clinical significance. *Placenta.*, 2009. 30(12): p. 1083-8. Epub 2009 Oct 22.
6. Räisänen S, Georgiadis L, Harju M, Keski-Nisula L, Heinonen S. True umbilical cord knot and obstetric outcome. *Int J Gynaecol Obstet.* 2013 Jul;122(1):18-21. doi: 10.1016/j.ijgo.2013.02.012. Epub 2013 Mar 21.
7. Ugianskiene A, Bor PA rare case with multiple true knots together with single artery and four umbilical cord nuchal loops. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2013 May;168(1):117-8. doi: 10.1016/j.ejogrb.2012.12.020. Epub 2013 Jan 30.
8. Srinivasan A, Graves L. Four true umbilical cord knots. *J Obstet Gynaecol Can.* 2006 Jan;28(1):32-5.
9. Ogbonmwan SE, Macleod I, Railton A. Severe intrauterine growth retardation due to taut triple knots of the umbilical cord. *J Obstet Gynaecol.* 1997 May;17(3):276-7.
10. Ulm MR, Obwegeser R, Ulm B, Deutinger J. An undetected reason for severe fetal growth retardation. *Eur J Ultrasound.* 1998 Dec;8(3):213-7.
11. Jones I. A truly knotted cord. *Aust N Z J Obstet Gynaecol.* 1998 Feb;38(1):98-9.
12. Goldkrand, J.W., et al., Doppler velocimetry in the fetus with a single umbilical artery. *J Reprod Med.*, 1999. 44(4): p. 346-50.
13. Sherer, D.M., et al., Recurrent antepartum compression of a single artery double nuchal cord necessitating emergency cesarean delivery. *Am J Perinatol.*, 2005. 22(8): p. 437-40.
14. Piskinpasa N, Tos T, Cekmez Y, Yılmaz Z, Cekmez F. A Rare Seen Case Report: Sirenomelia. *J Clin Analytical Med.* 2013 Nov.
15. Sepulveda, W., et al., True knot of the umbilical cord: a difficult prenatal ultrasonographic diagnosis. *Ultrasound in obstetrics & gynecology : the official journal of the International Society of Ultrasound in Obstetrics and Gynecology.* 1995. 5(2): p. 106-8.
16. Ramon y Cajal, C.L. and R.O. Martinez, Four-dimensional ultrasonography of a true knot of the umbilical cord. *American journal of obstetrics and gynecology.* 2006. 195(4): p. 896-8.
17. Scioscia, M., et al., Four-dimensional and Doppler sonography in the diagnosis and surveillance of a true cord knot. *J Clin Ultrasound.*, 2011. 39(3): p. 157-9. doi: 10.1002/jcu.20757. Epub 2010 Oct 18.
18. Clerici, G., et al., Multiple true umbilical knots: a silent risk for intrauterine growth restriction with anomalous hemodynamic pattern. *Fetal Diagn Ther.*, 2007. 22(6): p. 440-3. Epub 2007 Jul 24.

How to cite this article:

Dogan S, Ozyuncu O, Bozdog G. A Rare Combination Causing Fetal Demise: Isolated Single Umbilical Artery and Long Umbilical Cord. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 196-8.



A Case of Erythema Multiforme Related to Interferon Alpha 2A Treatment for Behçet Uveitis

Behçet Üveitinde İnterferon Alfa 2A Tedavisi ile İlişkili Eritema Multiforme Olgusu

İnterferon Alfa 2A Tedavisi ile İlişkili Eritema Multiforme / Erythema Multiforme Related to Interferon Alpha 2A

Ercan Karabacak¹, Ersin Aydın², Evren Gökeşme¹, Bilal Doğan¹
¹GATA Haydarpaşa Eğitim Hastanesi, ²Kasımpaşa Asker Hastanesi,
Deri ve Zührevi Hastalıklar Kliniği, İstanbul, Türkiye

Previously presented in Izmir 8.Ege Dermatoloji Günleri 08-12 May 2013

Özet

Eritema Multiforme (EM), simetrik yerleşimli, eritemli, papül-plak tarzı döküntüler ve hedef şeklinde lezyonlar ile karakterize, akut başlangıçlı bir hastalıktır. Etiyolojide enfeksiyonlar, ilaçlar ve nadiren kronik otoimmün hastalıklar rol almaktadır. İnterferon alfa 2a, Behçet hastalığında üveit tedavisinde etkili bir seçenek olarak kullanılmaktadır. Bu ilacın kullanımı sırasında gelişen çeşitli yan etkiler bildirilmiştir. Burada Behçet üveiti nedeniyle interferon kullanmasından iki hafta sonra yüz ve ekstremitelerde yaygın eritem, yer yer deskuamasyonlar ile çok sayıda değişik boyutlarda hedef benzeri lezyonlar saptanarak EM tanısı alan yirmi bir yaşında erkek hasta, Behçet Hastalığı nedeniyle interferon kullanımına bağlı bildirilen ilk EM olgusu olması nedeniyle sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Eritema Multiforme; İnterferon Alfa 2A; Behçet Hastalığı

Abstract

Erythema multiforme(EM); is an acute disease which is characterized with symmetric, erythematous, targetoid papul-plaque lesions. Infections, drugs and rarely chronic autoimmune diseases are common in etiology. Interferon alpha 2a is an effective treatment choice in Behçet's uveitis. Various adverse effects reported during use of this drug. In this report, 21 y.o. male Behçet's disease patient with generalized erythema, desquamation and multiple, various size targetoid lesions who is under interferon treatment diagnosed EM. This case is presented as a first interferon triggered EM in Behçet's disease.

Keywords

Erythema Multiforme; Interferon Alpha 2A; Behçet Disease

DOI: 10.4328/JCAM.2129

Received: 06.11.2013 Accepted: 25.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 199-201

Corresponding Author: Ercan Karabacak, GATA Haydarpaşa Teaching Hospital, 34668, Istanbul, Turkey.

T.: +905325221523 F.: +90 2163487880 E-Mail: ekarabacak@gata.edu.tr

Giriş

Eritema multiforme (EM), genellikle genç erişkinlerde ortaya çıkan, deri ve mukozayı tutan, akut gelişen ve kendini sınırlayan immun aracılıklı bir hipersensitivite reaksiyonudur. Etiyolojisinde ilaçlar ve enfeksiyonlar en önemli neden olarak karşımıza çıkmaktadır [1,2]. Enfeksiyonlar içerisinde en sık görülen etken HSV'dir ve rekürrenslere de neden olabilmektedir. Ayrıca fungal, bakteriyel ve diğer viral enfeksiyonlar ile parazitlerde etkenler arasında yer almaktadır. İlaçlardan sulfonamidler, penisilinler, sefalosporinler, antikonvülzanlar, NSAID ilaçlar, izoniazid, kinolonlar, TMP-SMX başta olmak üzere pek çok ilaç EM ile ilişkili bulunmuştur. İlaça bağlı EM, genellikle ilaç alımından bir-üç hafta sonra ortaya çıkar [3]. Olguların birçoğunda ateş, halsizlik, kas ağrısı gibi prodromal semptomlar belirgin değildir. Lezyonlar başlangıçta keskin sınırlı, yuvarlak merkezi daha koyu olan, targetoid görünümde, simetrik ve akral yerleşimlidir [4]. Bununla birlikte papüler, ürtikeryal ve vezikülobüllöz lezyonlarda görülebilmektedir.

Behçet hastalığı(BH)'nda üveit tanısı ile İnterferon alfa 2a(IFN-α 2a) kullanan hastaların yaklaşık %16.9'unda hafif veya ciddi yan etkiler gözlenmiştir [5]. Biz burada BH'na bağlı üveit nedeni ile IFN-α 2a tedavisi alan genç bir erkek hastada ortaya çıkan EM olgusunu sunuyoruz.

Olgu Sunumu

Yirmi bir yaşında erkek hasta, vücudunda bir hafta önce gelişen kızamıklık şikâyeti ile polikliniğimize müracaat etti. Hasta bu yakınmalarının ilk kez üveit tanısı ile IFN kullanmasından iki-üç hafta kadar sonra ortaya çıktığını, son üç ay içerisinde herhangi bir hastalık geçirmediğini ve başka bir ilaç kullanmadığını belirtti. Yaklaşık altı yıldır BH nedeniyle takip edildiğini ve bu süreç içerisinde farklı ilaç tedavileri aldığını ifade eden hastanın özgeçmişinde ve soygeçmişinde başka bir özellik yoktu. Dermatolojik muayenesinde yüz, boyun, pubik bölge, gövde ön ve arka yüzde, dağınık yerleşimli, eritemli zeminde, merkezi livedi renkte, bazıları tipik hedef benzeri papül ve plak tarzında lezyonlar izlendi. Üst ve alt dudakta hemorajik krutlar ve yer yer fissür alanları saptandı (Figür 1). Sistemik muayene 38.6 °C ateş haricinde doğaldı. Laboratuvar tetkiklerinde hemogram, rutin biyokimya, sedimentasyon ve CRP tetkikleri normal sınırlarda idi. EBV, CMV ve HSV açısından bakılan serolojik testler negatif olarak değerlendirildi. Hastaya mevcut anamnez, laboratuvar ve klinik bulgularla "Eritema Multiforme" tanısı konuldu. Diğer etiyolojik faktörler dışlandıktan sonra, klinik tablonun gelişimi, IFN-α 2a kullanımıyla ilişkili olarak değerlendirildi. Tedavi olarak Deflazokort 60 mg/gün, sistemik antihistaminik ve fissüre alanlara topikal antibiyotik tedavisi başlandı. Hastanın şikâyetlerinin bir haftalık tedavi ile gerilemesi üzerine sistemik kortikosteroid tedavisi kademeli olarak azaltılarak kesildi.

Tartışma

EM, simetrik yerleşimli, eritemli, papül-plak tarzı döküntüler ve hedef şeklinde lezyonlar ile karakterize, akut başlangıçlı bir hastalıktır. Genellikle kendi kendini sınırlamasına rağmen relapslar da görülebilmektedir. EM'nin klinik olarak mukozal ve/veya sistemik tutulumu göre ayrılan, minör ve majör iki formu vardır. Hastalığın patogenezi, sıklıkla enfeksiyöz ajanlara bağlı ortaya çıkan immunolojik reaksiyonun mukokutanöz göstergesi olarak



Figür 1. Gövde arka yüzde yer alan eritema multiforme lezyonları



Figür 2. Her iki el dorsalinde yer alan, eritemli zeminde targetoid lezyonlar

açıklanmaktadır. Etiyolojide olguların %90'ında HSV başta olmak üzere viral, bakteriyel ve fungal enfeksiyöz ajanlar, ilaçlar ve nadiren kronik otoimmun hastalıklar etken olarak karşımıza çıkmaktadır.

IFN-α 2a, potent antiviral ve antiproliferatif etkileri bulunan bir sitokindir. Avrupa Birliği ve ABD'de myelositik lösemi, Kaposi Sarkomu, saçlı hücreli lösemi, multipl myelom, non-Hodgkin lenfoma, kutanöz T hücreli lenfoma, bazal hücreli karsinoma, kon-düloma aküminata, kronik hepatit B ve kronik hepatit C enfeksiyonlarında kullanılmaktadır [6,7]. IFN-α 2a'ya bağlı olarak gelişen pek çok yan etki bildirilmiştir. İlaç dozunda değişiklik gerektirmeyen hafif yan etkiler arasında, influenza benzeri semptomlar, apati, irritabilite, kognitif değişiklikler, uyku bozukluğu, bulantı, diare, trombosit, granülosit ve eritrosit sayısında düşüklük, serum ALT, AST ve trigliserid miktarında artış ile proteinüri

gibi laboratuvar anormallikleri görülebilmektedir. Ciddi yan etkiler arasında ise, psikoz, depresyon, intihara eğilim, deliryum, konfüzyon gibi nöropsikiyatrik değişiklikler, otoimmün hastalıklar, retinopati, kardiyotoksisite, nefrotoksisite, hepatotoksisite gibi doz ayarlaması veya tedavinin sonlanması gerektirecek durumlar bulunmaktadır. EM'yi de içeren çeşitli döküntüler, kaşıntı, enjeksiyon yerinde kızarıklık, geçici alopesi, vitiligo ve psoriasis gelişimi ilacın dermatolojik yan etkileri arasında yer almaktadır [8-13].

Kronik Hepatit C enfeksiyonu tanısıyla IFN-α 2a tedavisi alan hastalarda yeni liken planus gelişimi ve mevcut liken planusta alevlenme de bildirilmiştir [14,15]. BH'na bağlı üveit nedeniyle IFN-α 2a kullanan hastaların değerlendirildiği bir çalışmada; aşırı yorgunluk, depresyon, epilepsi atakları, lökopeni, trombositopeni ve psoriasis gelişimi gibi yan etkiler saptanmıştır [5]. Bununla birlikte literatürde BH'nda EM benzeri lezyonların görüldüğünü bildiren az sayıda çalışmada mevcuttur[16]. Ancak bizim olgumuz, EM benzeri deri döküntüsünden farklı olarak mukozal tutulumun varlığı ve lezyon dağılımlarının simetrik olması itibarıyla eritema multiforme kliniği ile tam olarak örtüşmekteydi. Bu nedenle olgumuzda EM tablosunun gelişimi, lezyonların başlangıcı ile IFN-α 2a enjeksiyonu arasındaki ilişki de göz önünde bulundurularak interferon tedavisine bağlanmıştır. Yapılan literatür taramasında BH nedeniyle IFN-α 2a kullanımı sırasında gelişen EM olgusuna rastlanılmamıştır.

Sonuç olarak IFN-α 2a 'nın kronik viral enfeksiyonlara bağlı ortaya çıkan, tekrarlayıcı ve dirençli EM lezyonlarının tedavisinde etkili olduğu bildirilmişse de [17,18] nadiren şiddetli ilaç reaksiyonlarına yol açabileceği akılda tutulmalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Huff JC, Weston WL, Tonnesen MG. Erythema multiforme: a critical review of characteristics, diagnostic criteria, and causes. J Am Acad Dermatol. 1983 Jun;8(6):763-75.
2. Sokumbi O, Wetter DA. Clinical features, diagnosis, and treatment of erythema multiforme: a review for the practicing dermatologist. Int J Dermatol. 2012 Aug;51(8):889-902.
3. French LE, Prins C. Erythema multiforme, Stevens-Johnson syndrome and toxic epidermal necrolysis. In: Bologna JL, Jorizzo JL, Rapini RP, eds. Dermatology, 2nd edn, Vol. 1. St Louis, MO: Mosby Elsevier, 2008: 287-300.
4. Huff JC. Erythema multiforme. Dermatol Clin 1985; 3:141-152.
5. Sobaci G, Erdem U, Durukan AH, Erdurman C, Bayer A, Köksal S et al. Safety and effectiveness of interferon alpha-2a in treatment of patients with Behçet's uveitis refractory to conventional treatments. Ophthalmology. 2010 Jul;117(7):1430-5. doi: 10.1016/j.optha.2009.11.022. Epub 2010 Apr 24.
6. Geoffrey Dusheiko. Side Effects of Alpha Interferon in Chronic Hepatitis C. Hepatology 1997;26(Suppl 1):112S-121S.
7. Etem AA, Etem EÖ, Doğan GT, Yıldırım ST, Öz I. Uşak Yöresinde Yaşayan Behçet Hastalarında Hepatit B, C ve HIV Seroprevalansı. J Clin Anal Med 2013;4(2): 96-8.
8. Nakajima M, Kubota Y, Miyashita N, Niki Y, Matsushima T, Manabe. T. Recurrence of sarcoidosis following interferon alpha therapy for chronic hepatitis C. Intern Med 1996;35:376-379.
9. Nadir F, Fagioli S, Wright HI, Nadir A, Hopp E, Gavalier J et al. Rheumatoid arthritis: a complication of interferon therapy. J Oklahoma St Med Assoc 1994;87:228-230.
10. Pauluzzi P, Kokelj F, Perkan V, Pozzato G, Moretti M. Psoriasis exacerbation induced by interferon-alpha. Report of two cases. Acta Derm Venereol 1993;73:395.
11. Georgetown MJ, Yarze JC, Lalos AT, Webster GF, Martin P. Exacerbation of psoriasis due to interferon-alpha treatment of chronic active hepatitis. Am J Gastroenterol 1993;88:1756-1758.
12. Simsek H, Savas C, Akkiz H, Telatar H. Interferon-induced vitiligo in a patient with chronic viral hepatitis C infection. Dermatology 1996; 193(1):65-66.
13. Bernstein D, Reddy KR, Jeffers L, Schiff E. Canities and vitiligo complicating in-

terferon therapy for hepatitis C. Am J Gastroenterol 1995;90: 1176-1177.

14. Areias J, Velho GC, Cerqueira R, Barbedo C, Amaral B, Sanches MM et al. Lichen planus and chronic hepatitis C: exacerbation of the lichen under interferon-alpha-2a therapy. Eur J Gastroenterol Hepatol 1996;8:825-828.

15. Protzer U, Ochsendorf FR, Leopolder-Ochsendorf A, Holtermüller K-H. Exacerbation of lichen planus during interferon alfa-2a therapy for chronic active hepatitis C. Gastroenterology 1993;104:903-905.

16. Lee ES, Bang D, Lee S. Dermatologic manifestation of Behçet's disease. Yonsei Med J 1997;38(6):380-389.

17. Geraminejad P, Walling HW, Voigt MD, Stone MS. Severe erythema multiforme responding to interferon alfa. J Am Acad Dermatol 2006;54(2 Suppl):S18-21.

18. Berard F, Pincemaille B, Charhon A, Perrot H. Persistent erythema multiforme associated with chronic hepatitis C virus infection, Efficacy of interferon alpha. Ann Dermatol Venereol 1997;124(4):329-31.

How to cite this article:

Karabacak E, Aydın E, Gökeşme E, Doğan B. A Case of Erythema Multiforme Related to Interferon Alpha 2A Treatment for Behçet Uveitis. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 199-201.



Doc! Where are My Legs? Leriche Syndrome Case Report

Doktor! Bacaklarım Nerede? Leriche Sendromu Olgusu

Leriche Sendromu / Leriche Syndrome

Birdal Güllüpinar
Mersin Toros State Hospital, Emergency Department, Mersin, Turkey

Özet

Leriche sendromu, infrarenal aorta veya bilateral iliak arter bifurkasyonun tıkanmasıdır. Periferik vasküler hastalık olup her iki alt ekstremitayı tutar. Nadir görülen ve mortalitesi yüksek bir hastalıktır. Karakteristik semptomları bacakta kladi-kasyo, femoral nabızlarda azalma veya kaybolma ve erkeklerde erektil bozukluktur. Leriche sendromu tedavisi cerrahidir.

Anahtar Kelimeler

Leriche Sendromu; Parapleji; 3D Bilgisayarlı Tomografi

Abstract

Leriche syndrome is the obstruction of the infrarenal aorta or bilateral iliac artery bifurcation. It is a peripheral vascular disease and can affect both lower extremities. It is a rare disease with high mortality rates. The characteristic symptoms are claudication in the leg, decreased or absent femoral pulses and male erectile disorder. Leriche syndrome's treatment is surgery.

Keywords

Leriche Syndrome; Paraplegia; 3D Computed Tomography

DOI: 10.4328/JCAM.2162

Received: 14.11.2013 Accepted: 25.11.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 202-4

Corresponding Author: Birdal Güllüpinar, Mersin Toros Devlet Hastanesi Acil Servis, 33200, Akdeniz, Mersin, Turkey.

GSM: +905419400369 E-Mail: birdalg@yahoo.com

Giriş

Leriche sendromu (LS) bir periferik vasküler hastalık tipi olup nadir rastlanır. LS, infrarenal aorta veya bilateral iliak arter bifurkasyonunda tıkanması sonucu ortaya çıkan mortalitesi yüksek bir klinik tablodur. Bu sendromun temel nedeni “ateroskleroz”dur. Sıklıkla 50 yaşın üstündeki erkekleri tutar. Karakteristik semptomları ise bir veya iki bacakta kladikasyo yani yol yürümekle bacaklara gelip dinlenmekle geçen ağrı, femoral nabızlarda azalma veya kaybolma ve erkeklerde erektil bozukluktur [1]. Bu yazıda, acil servislerde nadir görülen yürüyememe ve nefes darlığı ile acil servise başvuran infrarenal aorta düzeyinde oklüzyon tespit ettiğimiz, LS tanısı koyduğumuz olguyu sunduk.

Olgu Sunumu

Öncesinde herhangi bir yakınması olmayan 71 yaşında erkek hasta 2-3 saat önce başlayan her iki bacakta uyuşma, daha sonra olan yürüyememe ve nefes darlığı şikayeti ile acil servise başvurdu. Hastanın özgeçmişinde koroner arter hastalığı, 18 yıl önce geçirilmiş koroner arter by-passgrefti (CABG) ve Alzheimer hastalığı vardı. Sigara kullanım öyküsü yoktu. Düzenli olarak donepezil 10 mg/gün ve asetilsalisilik asit 100 mg/gün kullanıyordu. Vital bulgularında sistolik/diastolik kan basıncı:147/101mmHg, nabız:116/dk, solunum sayısı:40/dk, ateş:36.1oC, oda havasında oksijen satürasyonu: %87 idi. Sağ-sol kan basıncı farkı yoktu. (147/101 mmHg-138/97 mmHg) Genel durum orta, bilinç açık, koopere, oryente olan hastanın fizik muayenesinde bilateral orta zonlara kadar raller vardı. Ayrıca bilateral alt ekstremiteler periferik nabızları alınamıyordu. Her iki alt ekstremitelerde kas gücü 1/5, soğuk ve soluktu.

Tüm diğer sistem muayeneleri olağandı. Elektrokardiografisinde sağ dal bloğu, ve sinüs taşikardi mevcuttu. Labaratuvar tetkiklerinde glukoz:283 mg/dl (80-115 mg/dl), BUN: 15 mg/dl (9.8-20.1 mg/dl), kreatinin: 1.4 mg/dl (0.6-1.3 mg/dl), sodyum: 146 mmol/L (136-145 mmol/L), potasyum: 5,5mmol/L (3,5-5,1 mmol/L); Tam kan sayımında beyaz kan hücresi: 16.8 U/L (4-10.3 U/L), Hb: 18.2 g/dl (13.5-17.5 g/dl), Htc: 54.1 (% 41-53), trombosit: 184 103/μL (156-373 μL) idi.Direk akciğer grafisinde bronkovasküler belirginleşme mevcuttu. Hastaya çekilen Bilgisayarlı tomografianjiografide infrarenal düzeyden başlayan bilateral iliak ve femoral arterleride içine alan total trombüs saptandı (Şekil-1).Hastaya başvurusunun birinci saatinde LS tanısı konuldu. Bunun üzerine kalp damar cerrahi konsültasyonu istenip acil başvurusunun ikinci saatinde operasyona gönderildi. Kalp damar cerrahi yoğun bakımına alınan hasta ikinci günü eksitus oldu.

Tartışma

Atheroskleroz, ilerleyen teknolojiye rağmen çağımızın en önemli sağlık sorunlarının başında gelmektedir. İnfrarenal aortanın en çok görülen hastalığı atheroskleroz olup, LS'nun etiyolojisinde önemlidir. LS, infrarenal aort ve iliak arterlerin aterosklerotik tıkaçıcı hastalığıdır. Bizim hastamızda atheroskleroza bağlı koroner arter hastalığı ve ardından CABG öyküsü mevcuttu.

LS'nun üç tipi vardır. LSTip I %5-10'unu oluşturur. Tıkaçıcı lezyonlar, distal abdominal aort ve common iliak arterlerin proksimal bölümünde lokalizedir ve kadınlarda sık görülür. Tip II %35'ini oluşturur. Lezyonların hem abdominal aortada hemde



Şekil 1. Abdominal aortun total oklüzyonunun 3 boyutlu görünümü



Şekil 2. Abdominal aortun total oklüzyonunun 3 boyutlu görünümü



Şekil 3. Abdominal aortun infrarenal düzeyden total oklüzyonunun görünümü



Şekil 4. Abdominal aortun infrarenal düzeyden total oklüzyonunun görünümü

iliak arterlerde yaygın olarak bulunduğu durumudur, yani hastalık abdominal damarlarla sınırlıdır. Tip III ise %60'ını oluşturur. Hem abdominal aortada ve iliak arterlerde hemde femoral arterlerde bilateral yaygın lezyonlar vardır. Genellikle bu gruptaki hastalar yaşlıdır ve erkeklerde sık görülür. Koroner ve serebral arter hastalıkları gibi yandaş hastalıklar sıkça görülür. Tip III hastalarda mortalite ve morbidite riski diğerlerine göre daha yüksek olup yaşam beklentisi azdır. Bizim hastamız yaygın lezyonları olması, yaşlı-erkek olması ve koroner arter hastalığı olması nedeniyle mortalite ve morbiditesi diğerlerine göre yüksek olan Tip III olarak düşünüldü.

LS'nun klasik triadı; intermittant kladikasyo, seksüel güçte azalma ve femoral arter pulsasyonlarının azalması ya da alınamamasıdır[1]. Egzersiz ile ortaya çıkan kladikasyon, hemen her zaman en erken bulgudur. Kollateral dolaşım istirahat esnasında bacağın beslenmesi için yeterlidir ancak kan akımında 5-10 kat artışa neden olan ağır egzersiz sırasında yetersiz kalır. Ayaklarda ve bacakta solukluk, palpasyonda her iki femoral arter pulsasyonu çok hafif alınabilmesi yada alınamaması, popliteal ve tibial arter pulsasyonlarının alınamaması, deride atrofik değişiklikler, ülserasyonlar, iskemik nekroz yada gangren görülebilir.

Bu sendromda kalça ve bacak ağrısı görüldüğünden vertebral dejeneratif değişiklikler, disk hernisi sonucu sinir kökü irritasyonu, diyabetik nöropati gibi nedenlerle oluşan ağrılardan ayırt etmek gerekmektedir.

Abdominal aortanın akut tıkanıklığı erken dönemde yüksek ölüm oranı ile ilişkilidir [2]. İnfrarenal aortik tıkanıklığının nonoperatif yönetimi, yüksek ölüm oranı ve ekstremité kaybı ile ilişkilidir [3]. Bu hastalarda anamnez ve fizik muayane ile tanı kolaylıkla konabilir. LS tanısında ultrasonografi ve Bilgisayarlı Tomografi anjiyografi kullanılır.

LS tedavisi cerrahidir. Aorta-bifemoral bypass greft uygulaması

(%90-95) ve Aorta-iliak endarterektomi (%5-10) yöntemleri kullanılır [1]. Bizim hastamızda cerrahiye alındı. Ancak geç başvuru nedeniyle eksitus oldu.

Sonuç olarak, acil servislere paraplejik gelen ve şiddetli ağrı tarif eden hastalarda, öncelikle ayırıcı tanıda infrarenal aortik oklüzyon akla gelmeli ve femoral nabızlar mutlaka kontrol edilmelidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Brewster DC. Direct reconstruction for aortoiliac occlusive disease. In: Rutherford RB, Cronenwett JL, Gloviczki P, Johnston KW, Kempczinski RF, Kpurski WC, eds. Rutherford Vascular Surgery. 5th ed. Philadelphia: WBSaunders 2000;p: 943-67.
2. Babu SC, Shah PM, Nitahara J. Acute aortic occlusion-factors that influence outcome. J Vasc Surg 1995; 21:567-72.
3. Ligush J Jr, Criado E, Burnham SJ, Johnson G Jr, Keagy BA. Management and outcome of chronic atherosclerotic infrarenal aortic occlusion. J Vasc Surg 1996; 24:394-404; discussion 404-5.

How to cite this article:

Güllüpinar B. Doc! Where are My Legs? Leriche Syndrome Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 202-4.



An Adult Form of Gaucher Disease Associated with Portal Hypertension: A Case

Portal Hipertansiyon ile İlişkili Erişkin Form Gaucher Hastalığı: Olgu Sunumu

Erişkin Form Gaucher Hastalığı / An Adult Form of Gaucher Disease

Ahmet Cumhur Dülger¹, Sevdegül Karadaş², Hayriye Gönüllü², Bilge Gültepe³, Mehmet Taşdemir⁴
¹Gastroenteroloji AD, ²Acil Tıp AD, ³Klinik Mikrobiyoloji AD, ⁴İç Hastalıkları AD.
Yüzüncü Yıl Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Van, Türkiye

Özet

Gaucher hastalığı, hücrel glükolipidlerin geri dönüşüm metabolizmasını etkileyen doğumsal bir hastalıktır. Glukozilseramid (glukoserebrozid) hücrelerin lizozomlarında birikir. Gaucher hastalığı en sık görülen lizozomal depo hastalığı olup, insidansı 1/75.000'dir. Hastalığın üç tipi tanımlanmıştır. Bu hastalığın seyrinde hepatosplenomegali, portal hipertansiyon, hiperferritinemi, splenik nodüller ve infarktlar gelişebilir. Bu nedenle Gaucher hastalığı; olgumuzda olduğu gibi, tanısı açıklanamayan hepatosplenomegali, portal hipertansiyon, hiperferritinemi, splenik nodüller ve infarkt olan hastalarda hatırlanmalıdır.

Anahtar Kelimeler

Gaucher Hastalığı; Portal Hipertansiyon; Splenik İnfarkt

Abstract

Gaucher disease (GD) is an inborn error of metabolism that affects the recycling of cellular glycolipids. Glucosylceramide (also called glucocerebroside) accumulate within the lysosomes of cells. Gaucher's disease is most common lysosomal storage disease and its incidence is 1/75.000. Three types of this disease have been defined. During the course of disease, it was reported that hepatosplenomegaly, portal hypertension, hyperferritinemia, splenic infarcts and splenic nodules might develop. Therefore, as in our case; Gaucher's disease must be remembered in the setting of hepatosplenomegaly, portal hypertension, hyperferritinemia, splenic infarcts and splenic nodules of unknown etiology.

Keywords

Gaucher's Disease; Portal Hypertension; Splenic Infarct

DOI: 10.4328/JCAM.2167

Received: 18.11.2013 Accepted: 03.12.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 205-7

Corresponding Author: Sevdegül Karadaş, Yüzüncü Yıl Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Acil Tıp AD, Van, Türkiye.

E-Mail: sevdegulkaradas@gmail.com

Giriş

Gaucher hastalığı (GH) beta glukoserebrosidaz enzim eksikliği sonucu retikuloendotelial sistemdeki makrofajlarda glukoserebrosid depolanması ile sonuçlanan, nadir görülen, otozomal resesif geçişli kalıtsal bir hastalıktır [1]. Bu hastalığın nörolojik tutulumun varlığına göre 3 tipi mevcut olup, her birinden enzimin farklı mutasyonları sorumludur [1].

Hastalığın en sık görülen formu non-nöronopatik-erişkin (veya tip I) olanıdır. Bu form tüm yaşlarda görülebilmekte, sıklıkla kemik iliği, lenf bezleri, karaciğer ve dalağı etkileyip zaman içinde organomegali ile sonuçlanmaktadır [2,3]. Erişkin formda bulgular erken çocukluk döneminden itibaren tüm yaşlarda başlayabilmekte ve gastrointestinal tutulumla ait bulgular daha belirgin olabilmektedir [1].

Hastalarda öncelikle hematolojik bozukluklar, hepatosplenomegali ve kemik lezyonları gelişmekte, hastalığın seyrinde portal hipertansiyon nadiren de olsa gelişebilmektedir [4]. Gaucher hastalığının tanısı klinik ve laboratuvar bulguları ile birlikte karaciğer, dalak veya kemik iliği biopsi bulguları ile konulmaktadır. Ayrıca enzim düzeyinin ölçümü ve gen mutasyonlarının tespiti ile tanı ve tiplendirme yapılmaktadır [5]. Bu yazıda portal hipertansiyonun geliştiği, ileri yaşta bir Gaucher hastalığı olgusu sunulmuştur.

Olgu Sunumu

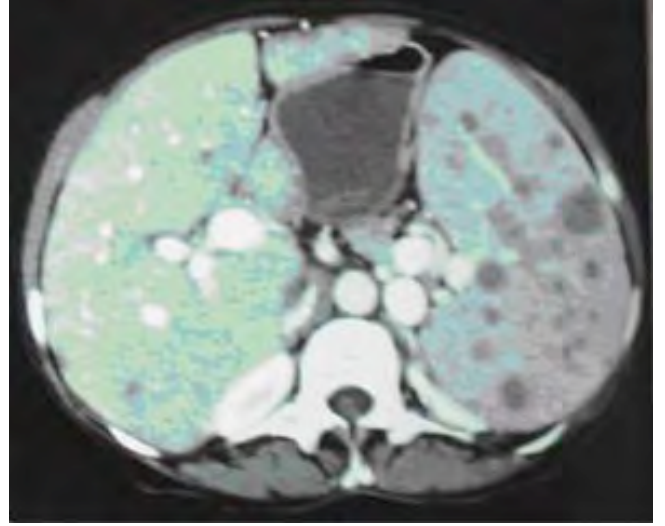
52 yaşında kadın hasta karında ağrı, halsizlik, yorgunluk ve yaygın kemik ağrısı şikayetleri ile acil servise başvurdu. Özgeçmişinde; bu semptomların yaklaşık 20 yıldır varolduğu öğrenildi. Hastanın soygeçmişinde bir özellik bulunmamaktaydı. Fizik muayenesinde arteriyel kan basıncı 110/80 mmHg, nabız 80/dakika, vücut ısı 37,4 oC, solunum sayısı 18/dakika idi. Batın muayenesinde tüm kadrantlarda minimal hassasiyet mevcuttu. Dalak kot kenarından 14 cm; karaciğer ise düzgün yüzeyli ve yaklaşık 8 cm palpe edilmekteydi. Kemikler palpasyonla hassas, cilt soluk görünümdeydi. Diğer sistem muayeneleri normaldi. Olgunun laboratuvar tetkikleri tablo-1'de sunuldu. Batın ultrasonografisinde karaciğer 180 mm (normal:midklavikular hatta, kraniokaudal eksen:155 mm) ve dalak 210 mm (normal: kraniokaudal eksen:130 mm) olarak ölçüldü ve başka bir özellik rapor

Tablo 1. Olgunun laboratuvar parametreleri

Parametre adı	
¹ AST (U/L)	32 (0-31)
² ALT (U/L)	16 (0-41)
³ ALP (U/L)	339 (20-100)
⁴ LDH (U/L)	311 (240-480)
⁵ GGT(U/L)	42 (10-40)
Alfa-Fetoprotein ng/ml	2,39 (0-14)
Ferritin ng/ml	590 (14-150)
Total Bilirubin (mg/dl)	0,8 (0-1)
Kreatin (mg/dl)	0,4 (0,7-1,3)
Lökosit (109/L)	1,7 (4-11)
Trombosit(109/L)	24 (150-400)
Hemoglobin (g/dl)	11,3 (11-18)
⁶ MCV (fL)	83 (80-100)
Sedimentasyon(mm/saat)	24

¹Aspartat aminotransferaz, ²Alanin aminotransferaz, ³Alkalen fosfataz, ⁴Laktat dehidrogenaz, ⁵Gama glutamil transferaz, ⁶Mean cell volume

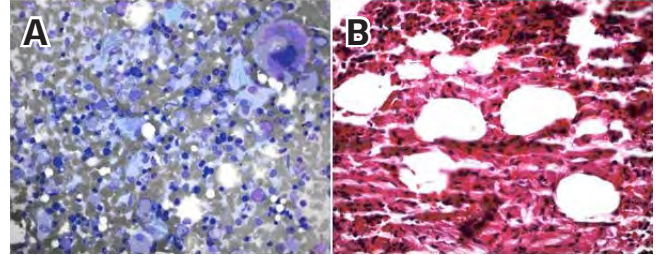
edilmedi. Batın bilgisayarlı tomografi incelemesinde karaciğer midklaviküler hatta 22 cm olup içerisinde çok sayıda hipodens düzensiz sınırlı lezyonlar vardı. Portal ven ve splenik ven genişlemiş olarak görüldü. Dalak 24 cm olup içerisinde İV kontrast madde sonrası çok sayıda hipodens nodüler lezyonlar mevcuttu. İnferior ve superior bölgelerde infarkt ile uyumlu alanlar vardı (Resim 1). Endoskopik incelemede ise grade I özofagus varis-



Resim 1. Dalakta Gaucher hastalığı için tipik sayılan multiple hipodens lezyonların bilgisayarlı batın tomografi görüntüsü

leri ve pangastirit tesbit edildi. Kemik grafileri ve protein elektroforezi normaldi.

Hastanın klinik tablosunu aydınlatmak için kemik iliği (Kİ) biyopsisi yapıldı. Biyopsi materyalinde, Gaucher Hastalığı ile uyumlu histiositik infiltrasyon ve orta derece retikülün lif artışı gösteren hiposellüler kemik iliği gözlemlendi (Resim 2A-2B).



Resim 2. Kemik iliğinde buruşuk kağıt görünümünü andıran ince stoplazmalı gaucher hücreleri (MGG boyası X40 büyütme) (A), Kemik iliğinde myeloid hücrelerle birlikte büyük soluk pembe makrofajlar (HE boyası X40 büyütme) (B).

Tartışma

Masif splenomegali, hepatomegali ve hipersplenizm bulguları tesbit edilen olguda; masif splenomegali ayrı tanı yapıldı. Enfeksiyöz hastalıklar dışlanarak uzun yıllardır semptomlarının olması nedeniyle hematolojik ve infiltratif hastalıklar ön planda düşünülerek kemik iliği biyopsisi yapıldı ve Gaucher hastalığı tanısı konuldu.

Gaucher hastalığının klinik bulguları glukoserebrosid yüklü makrofajların karaciğer, dalak ve kemik iliğinde toplanmasına bağlı olarak gelişir. Bu hücreler küçük, genellikle eksantrik nükleuslu ve sitoplazmasında belirgin çizgilenmeler olan hücrelerdir. Sitoplazmaları PAS boyası ile boyanır [5]. Hastalıkta dalak masif olarak büyür ve şekilli kan elemanlarını sekestre eder. Hafif anemi, orta derecede lökopeni ve ağır trombositopeni sıklıkla mev-

cuttur [3]. Olgumuzun kemik iliği biopsisinin bulguları hastalık ile uyumlu olup, splenomegali, tam kan sayımında trombositopeni ve lökopeni vardı.

Gaucher hastalığında, iskelet lezyonları genellikle yaygındır. Kemik demineralizasyonunun olduğu yamalı alanlar gözlemlenebilir ve distal femurdaki genişleme tipik “Erlenmeyer şişesi” görünümünü doğurur. Kemiklerde ağrı hastalığın sık görülen bir semptomu olup çok ağır seyredebilir [6]. Hastamızın kemik grafileri normaldi, ancak yaygın kemik ağrıları mevcuttu.

Portal hipertansiyon Gaucher hastalığının oldukça nadir bir komplikasyonu olup etyolojisinde Gaucher hücrelerinin sinüzoidlere basısı suçlanmaktadır [4,7]. Sunulan olgunun yaşının ileri ve nörolojik muayenesinin normal olması nedeniyle olgu tip I olarak değerlendirildi. Özofagus varislerinin varlığı ile birlikte portal ve splenik venlerde genişleme ise portal hipertansiyon olarak yorumlandı.

Hiperferritinemi; GH'nın seyrinde oldukça sık gözlenir ancak bir başlangıç bulgusu olarak tarif edilmemiştir [8]. Olgumuzun ferritin düzeyi orta derecede yüksekti ve bir akut faz reaktanı olarak yükselmediği; enfeksiyon odağının saptanmaması ve CRP'nin normal düzeylerde olması ile belirlenmiştir.

Gaucher hastalığının radyolojik bulguları arasında hepatosplenomegali dışında splenik nodüller ve splenik infarktlar da vardır. Splenik nodüller %30, splenik infarktlar %33, her ikisi birden %9 oranında görülmektedir [9]. Olgumuzda hem splenik nodüller hem de beraberinde splenik infarktlar vardı ve olgumuz hastalığın dalakla ilgili nadir görülen radyolojik özelliğini taşıyordu. Gaucher hastalığında başarılı bir tedavi için plasental veya rekombinan teknoloji ile elde edilen B-glukoserebrosidaz uygulanmaktadır [1,3]. Yeni bir ajan olan N-Butyldeoxinojirimisin ile 12 aylık tedavi sonrası başarılı sonuçlar bildirilmiştir [10]. Ayrıca kemik iliği transplantasyonu uygulanan tedaviler arasındadır [3]. Olgu tedavi için ileri bir merkeze gönderilmiştir.

Ülkemizde yalnız acil durumların müdahalesi ile sınırlı kalmayan ve çok çeşitli hastalık gruplarının başvurusunun kaçınılmaz olduğu acil servislere kronik ve kalıtsal durumlar için doğru yönlendirmeler yapılmalıdır. Ayrıca acil servise karın ağrısı şikayeti ile başvuran hastalarda hepatosplenomegali, kemik ağrıları ve hematolojik anormallikler saptanmışsa ayırıcı tanıda “Gaucher hastalığı” hatırlanmalı ve araştırılmalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Elstein D, Abrahamov A, Hadas-Halpern I, Zimran A. Gaucher's disease. Lancet 2001; 358(9278): 324-7.
2. Charrow J, Andersson HC, Kaplan P, Kolodny EH, Mistry P, Pastores G et al. The Gaucher Registry: demographics and disease characteristics of 1698 patients with Gaucher disease. Arch Intern Med 2000;160(18):2835-43.
3. Whitfield PD, Nelson P, Sharp PC, Bindloss CA, Dean C, Ravenscroft EM et al. Correlation among genotype, phenotype, and biochemical markers in Gaucher disease: implications for the prediction of disease severity. Mol Genet Metab 2002; 75(1): 46-55.
4. Bandyopadhyay R, Bandyopadhyay S, Maity PK. Gauchers disease presenting with portal hypertension. Indian Pediatr 2011; 48(10): 801-2.
5. Karaca Ç, Bahat G, Demir K, Akyüz F, Danalıoğlu A, Beşişik F ve ark. Portal hipertansiyon ve retinitis pigmentosa ile birliktelik gösteren Gaucher hastalığı vakası (olgu sunumu ve literatürün gözden geçirilmesi). Akademik Gastroenteroloji Dergisi 2002; 1(1): 53-9.
6. Stowens DW, Teitelbaum SL, Kahn AJ, Barranger JA. Skeletal complications of Gaucher disease. Medicine (Baltimore) 1985; 64 (5): 310-22.

7. Lachmann M. Massive hepatic fibrosis in Gaucher's disease: clinico- pathological and radiological features. RH QJM 2000; 93 (4): 237-44.
8. Decaux O, Cazalets C, Grandgirard N, Fergelot P, Jegou P, Grosbois B. Hyperferritinemia revealing Gaucher's disease. Eur J Intern Med 2003; 14 (3): 199-201.
9. Hill SC, Damaska BM, Ling A, Patterson K, Di Bisceglie AM, Brady RO et al. Gaucher disease: Abdominal MR imaging findings in 46 patients. Radiology 1992; 184 (2): 561-6.
10. Cox T, Lachmann R, Hollak C, Aerts J, van Weely S, Hrebíček M et al. Novel anal treatment of Gaucher's disease with N-butyldeoxy nojirimisin (OGT 918) to decrease substrate btosynthesis. Lancet 2000; 355, 1481-5.

How to cite this article:

Dülger AC, Karadaş S, Gönüllü H, Gültepe B, Taşdemir M. An Adult Form of Gaucher Disease Associated with Portal Hypertension: A Case. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 205-7.



Giant Cavernous Haemangioma of the Spleen Causing Thrombocytopenia and Anemia

Trombositopeni ve Anemiye Neden olan Dalağın Dev Kavernöz Hemanjiomu

Dalağın Dev Kavernöz Hemanjiomu / Giant Cavernous Haemangioma of the Spleen

Güvenç Diner¹, Orhan Veli Özkan², Muzaffer Yıldırım³, Yasemin Gündüz⁴, Ömer Yalkın²

¹T.C. Sağlık Bakanlığı Simav Devlet Hastanesi, Genel Cerrahi Kliniği, Simav, Kütahya,

²T.C. Sağlık Bakanlığı Sakarya Üniversitesi Tıp Fakültesi Eğitim ve Araştırma Hastanesi Genel Cerrahi AD, Sakarya,

³T.C. Sağlık Bakanlığı Sakarya Üniversitesi Tıp Fakültesi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji AD, Sakarya,

⁴T.C. Sağlık Bakanlığı Sakarya Üniversitesi Tıp Fakültesi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji AD, Sakarya, Türkiye

Bu çalışma (IV. Ulusal Haseki Kongresi, 11-14 Nisan 2013, Kıbrıs.) poster olarak sunulmuştur.

Özet

Kavernöz hemanjiom, trombositopeni ve anemiye neden olabilen nadir bir dalak hastalığıdır. Genellikle 2cm'den küçük olmakla beraber nadiren büyük boyutlara ulaştığı da olur. Bu çalışmada iki aydır sol üst kadran ağrısı, halsizlik, kilo kaybı olan, anemi, trombositopeni ve masif splenomegalisi olan 28 yaşında kadın hasta sunuldu. Ultrasonografi ve bilgisayarlı tomografi dalakta 15x15cm büyüklüğünde solid kitle ve masif splenomegali gösterdi. Açık splenektomi uygulandı ve patolojik incelemede kavernöz hemangiom saptandı. Trombositopeniye, anemiye neden olması, rüptür riski taşıması ve kesin tanı için büyük dalak kitlelerinde splenektomi endikasyonu vardır.

Anahtar Kelimeler

Dalağın Dev Kavernöz Hemanjiomu; Trombositopeni; Anemi; Açık Splenektomi

Abstract

Cavernous haemangioma is a rare disorder which cause of splenomegaly, anemia and thrombocytopenia, of the spleen. Although they are usually less than 2 cm in size, uncommonly they can attain large sizes. A 28-year-old woman presented with a two-month history of pain in the left hypochondrium, weakness, weight loss and massive splenomegaly with thrombocytopenia and anemia. Ultrasonography and computed tomography showed massive splenomegaly and sized 15x15 cm solid mass. Open Splenectomy was applied and histopathology showed cavernous haemangioma. Splenectomy is indicated when the tumor is large due to risk of hemorrhage and cause thrombocytopenia and anemia.

Keywords

Giant Cavernous Haemangioma of the Spleen; Thrombocytopenia; Anemia; Open Splenectomy

DOI: 10.4328/JCAM.2183

Received: 24.11.2013 Accepted: 19.12.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 208-10

Corresponding Author: Orhan Veli Özkan, T.C. Sağlık Bakanlığı Sakarya Üniversitesi, Tıp Fakültesi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Genel Cerrahi AD, Sakarya, Türkiye. GSM: +905323417440 E-Mail: veliorhan@hotmail.com

Giriş

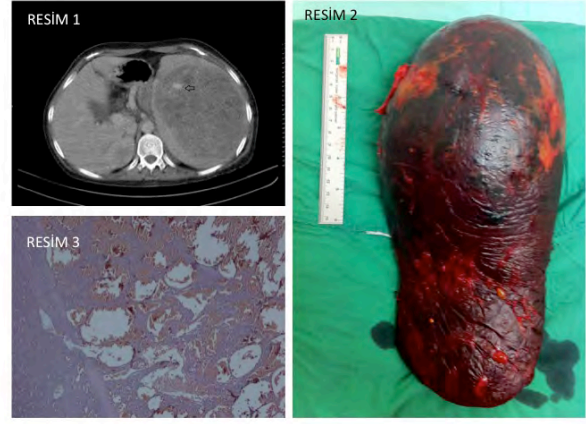
Splenik hemanjioma (SH) dalağın nadir görülen benign tümörlerindendir. Çoğunlukla asemptomatiktir, ancak başka nedenlerle yapılan batin tetkiklerinde insidental olarak saptanır[1]. Genellikle büyüklüğü 2cm'den azdır ve çok nadiren dev boyutlara ulaşır ve görülme sıklığı ise geniş otopsi serilerinde %0.03 - 14 arasında değişir[2,3]. SH gelişimi yavaştır; belirtiler ve komplikasyonlar geç ortaya çıkar. Hastaların çoğuna tanı konulduğunda 30-50 yaşlarındadır. SH olan hastalarda anemi, trombositopeni ve koagülopati olması durumu Kasabach-Merritt sendromu olarak tanımlanmıştır[4]. Bu hastalar splenektomi ile küratif olarak tedavi edilebilir. Bu çalışmada anemisi, trombositopenisi, dev kavernöz hemangiomu olan ve splenektomi ile tedavi edilen hasta sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Olgu 28 yaşında kadın hasta idi. Hastanın yaklaşık 2 aydır karın ağrısı, halsizlik, yorgunluk, kilo kaybı şikayetleri vardı. Kilo kaybı iki ayda yaklaşık 7-8 kg idi. Hastanın özgeçmişinde ve soygeçmişinde özellik yoktu. Fizik muayenesinde traube alanı kapalı ve batin sol alt kadrana kadar uzanan splenomegali ve derin palpasyonda hassasiyeti olduğu saptandı. Laboratuvar incelemelerinde anemi, (hemoglobin: 7.0 g/dl, hematokrit değeri: %21) ve trombositopenisi (plt:70.000/mm³) mevcuttu. Biyokimyasal incelemeler normal idi. Batin ultrasonografisinde dalak boyutları ileri derecede artmış ve dalak üst polde solid kitle izlendi. Tüm batin bilgisayarlı tomografisinde dalak parankiminde splenomegaliye neden olan, periferinde nodüler tarzda kontrastlanma izlenen, hipodens nekrotik alanlar da içeren düzgün konturlu, heterojen dansitede hemanjiom kitlesi görülmektedir (Resim1). Hastaya elektif splenektomi planlandı. Ameliyat öncesi dönemde 4 ünite eritrosit süspansiyonu, 2 ünite trombosit verilerek hematokrit değeri %30, hemoglobin değeri 10 g/dl ve trombosit değeri 105.000/mm³ olarak ameliyata alındı. Laparotomi esnasında dalağın batin sol alt kadrana kadar ileri derecede büyüdüğü ve üst polde yaklaşık 15x15cm ebadında solid kitle olduğu saptandı. Total splenektomi uygulandı. Piyesin makroskopik patolojik incelemesinde dalak boyutu 32x16x12 cm, ağırlığı 2260 gr olarak ölçüldü (Resim 2). Piyesin histopatolojik değerlendirmesinde ise kitlenin dalak kapsülü içinde sınırlı 15x14x13 cm boyutunda, vişne çürüğü renginde, düzgün sınırlı kavernöz hemanjiom düşündüren, dalak parankimi içinde sayıca artmış, organize, dilate ve ince duvarlı vasküler yapılar olduğu tespit edildi (Resim 3). Takiplerinde hastanın anemi ve trombositopenisi normal değerlere döndü. Ameliyat sonrası dönemde komplikasyon gelişmeyen hasta 8.gününde problemsiz bir şekilde taburcu edildi.

Tartışma

Hemanjiomlar, genellikle çocukluk çağında görülen, yüzey yerleşimli ve üzerindeki deride kırmızı-morumsu renk değişikliğine yol açar. Çoğunluğu zaman içinde gerilese de derinde yerleşen ve büyük olanlar erişkin dönemde de varlığını sürdürür. Etiyolojisi etkili olan faktörler tam olarak ortaya konamamıştır. Karaciğer ve dalak hemanjiomların görülebildiği önemli iki iç organdır. SH'un, üç alt grubu vardır: Kavernöz, kapiller ve miks tip; en az görüleni ise kapiller tiptir[5]. Belirti vermediği halde rastlantısal olarak saptanabildiği gibi rüptür [6] ve kanama dışında trombositopeni, anemi ve koagülopati önemli hematolojik anor-



Resim 1. Aksiyel planda alınan kontrastlı batin BT kesitinde dalak parankiminde splenomegaliye neden olan, periferinde nodüler tarzda kontrastlanma izlenen (ok), hipodens nekrotik alanlar da içeren düzgün konturlu, heterojen dansitede hemanjiom kitlesi görülmektedir.

Resim 2. Splenektomi yapılan dalak piyesinin makroskopik görünümü

Resim 3. X4 . Hematoksilen-Eozin boyama.Dalak parankimi içinde sayıca artmış, organize, dilate ve ince duvarlı vasküler yapılar

malliklerle de ortaya çıkabilir. Splenik hemanjiomlar, çoğunlukla çocukluk döneminde görülür. Erişkin dönemde klinik belirti vermediği için rastlantısal olarak yapılan ultrasonografi gibi başka nedenlerle yapılan incelemelerde veya otopside saptanabilir. Büyüklüğü 2cm'den küçük olur. Bu çalışmada sunduğumuz hasta 28 yaşında ve dev boyuta (15x15cm) ulaştınca karın ağrısı, halsizlik, yorgunluk gibi şikayetlere neden olmuştur.

Hemanjiomlar, dev boyuta ulaştığı zaman veya diffüz (hemanjiomatozis) kalp yetmezliği veya motaliteye neden olabilecek olan Kasabach-Merrit sendromuna yol açabilir. Kasabach-Merrit sendromu ilk defa 1940 yılında tanımlanmıştır. Trombositopeni, tüketim koagülopatisi dev hemangioma ile ilişkili bulunmuştur. Bu durumda trombositlerin tümör boyunca sürekli olarak birikmesi ve sıkışması hem trombositopeniye hem de koagülasyon kaskadının aktivasyonuna neden olmaktadır. Bu iki fenomen hızlı tüketim koagülopatisine ve kanama diyatezine yol açabilmektedir[6]. Bu çalışmada sunduğumuz hastada ise tromstopeni ve anemi olmasına rağmen kanama diyatezi meydana gelmemiştir. SH tedavisinde açık veya laparoskopik olarak kısmi veya total splenektomi yapılabilir. Laparoskopik teknikler, çapı 20cm'e kadar olan dalak kistlerinde uygulanmış ve yüksek nüfus oranları ile karşılaşılmıştır[7-9]. Özellikle çocuklarda dalağın immünolojik fonksiyonlarının devam etmesi için kısmi splenektomi yapılmasını öneren yayınlar vardır[6]. Bunun yanında küçük çaplı (2.3cm) SH'da radiofrekans ablasyon öneren otörler de vardır[10]. Ancak burada sunduğumuz gibi dev boyutlara ulaşmış kitle ve dalakta açık splenektomi önerilmekte ve hastanın semptom ve bulguları düzeltilmektedir.

Sonuç olarak SH çoğunlukla küçük boyutlu ve asemptomatik olmasına rağmen bazen dev boyuta ulaşabilir. Anemi, trombositopeni ve dev splenomegaliye yol açabilir. Bu durumda kesin tanı ve neden olduğu semptom ve bulguların tedavisi için açık splenektomi yapılması kanaatindeyiz. Trombositopeniye, anemiye neden olması, rüptür riski taşıması ve kesin tanı için büyük dalak kitlelerinde splenektomi endikasyonu vardır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Knott EM, Valusek PA, St Peter SD. Laparoscopic excision of a giant splenic vascular tumor. J Pediatr Surg. 2012;47(7):E21-3.
2. Ersöz C, Uğuz A, Altınay R. Splenik Hemanjioma: İki Olgu Sunumu. Ç.Ü. Tıp Fakültesi Dergisi. 2002; 27: 105-9.
3. Disler DG, Chew FS. Splenic hemangioma. AJR Am J Roentgenol. 1991;157(1):44.
4. Tang JY, Chen J, Pan C, Yin MZ, Zhu M. Diffuse cavernous hemangioma of the spleen with Kasabach-Merritt syndrome misdiagnosed as idiopathic thrombocytopenia in a child. World J Pediatr. 2008;4(3):227-30.
5. Knott EM, Valusek PA, St Peter SD. Laparoscopic excision of a giant splenic vascular tumor. J Pediatr Surg. 2012;47(7):E21-3. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2012.03.054.
6. Carta G, D'Alfonso A, Nallbani A, Palermo P, Franchi V, Patacchiola F. Spontaneous rupture of splenic hemangioma in puerperium Clin Exp Obstet Gynecol. 2012;39(3):407-8.
7. Fisher JC, Gurung B, Cowles RA. Recurrence after laparoscopic excision of non-parasitic splenic cysts. J Pediatr Surg 2008;43:1644-8.
8. Keckler SJ, St. Peter SD, Tsao K, et al. Laparoscopic excision of splenic cysts: a comparison to the open approach. Eur J Pediatr Surg 2010;20:287-9.
9. Schier F, Waag KL, Ure B. Laparoscopic unroofing of splenic cysts results in a high rate of recurrences. J Pediatr Surg 2007;42:1860-3.
10. Zhang X, Yang J, Yan L. Successful management of a symptomatic splenic haemangioma by radiofrequency ablation. Dig Liver Dis. 2012;44(3):e6. doi: 10.1016/j.dld.2011.09.012.

How to cite this article:

Diner G, Özkan OV, Yıldırım M, Gündüz Y, Yalkın Ö. Giant Cavernous Haemangioma of the Spleen Causing Thrombocytopenia and Anemia. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 208-10.



Diffuse Myocardial Tc99m HDP Uptake in a Hemodialysis Patient: A Rare Case

Hemodiyalize Giren Hastada Diffüz Miyokardiyal Tc99m HDP Tutulumu: Nadir Bir Olgu

Hemodiyalize Giren Hastada Miyokardiyal Tc99m HDP Tutulumu / Myocardial Tc99m HDP Uptake in a Hemodialysis Patient

Murat Sadıç, Hasan İkbâl Atılğan, Gökhan Koca, Koray Demirel, Meliha Korkmaz
Ministry of Health Ankara Training and Research Hospital, Department of Nuclear Medicine, Ankara, Turkey

Özet

Kemik sintigrafisinde kemik patolojilerinin yanı sıra yumuşak dokuda da tutulum izlenebilmektedir. Neoplastik, hormonal, inflamatuvar, iskemik, travmatik ve artefakta bağlı olarak anormal yumuşak doku tutulumları olabilmektedir. Bu olguda kronik böbrek yetmezliği nedeniyle hemodiyalize giren hastadaki kemik sintigrafisinde nadir gözlenen kardiyak kalsinoze bağlı miyokardiyal Teknesyum99m hidroksimetilen difosfonat (Tc99m HDP) tutulumunu sunulmaktadır.

Anahtar Kelimeler

Hemodiyaliz; Teknesyum99m Hidroksimetilen Difosfonat (Tc99m HDP); Kardiyak Kalsinozis; Metastatik Kalsifikasyon

Abstract

In addition to bone pathologies, soft tissue uptake may also be seen with bone scintigraphy. Abnormal soft tissue uptake may be due to neoplasia, hormonal changes, inflammation, ischemia, trauma and artifacts. A case is here presented of cardiac calcinosis detected incidentally by Technetium99m hydroxymethylene diphosphonate (Tc99m HDP) in a patient undergoing hemodialysis for chronic renal failure.

Keywords

Hemodialysis; Technetium99m Hydroxymethylene Diphosphonate (Tc99m HDP); Cardiac Calcinosis; Metastatic Calcification

DOI: 10.4328/JCAM.2186

Received: 25.11.2013 Accepted: 22.12.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 211-3

Corresponding Author: Murat Sadıç, Department of Nuclear Medicine, Ministry of Health, Ankara Training and Research Hospital, 06340, Ankara, Turkey.

T.: +90 3125953608 F.: +90 3125953856 E-Mail: mdmuratsadic@gmail.com

Introduction

Technetium99m hydroxymethylene diphosphonate (Tc99m HDP) bone scintigraphy has high sensitivity but low specificity for the imaging of the skeletal system [1]. Abnormal soft tissue uptake is a rare finding with an incidence of 2% [2]. It may be due to neoplasia, hormonal changes, inflammatory, ischemic, traumatic and artifact. The mechanism of increased extraosseous uptake of Tc99m HDP is thought to be due to an increase in extracellular fluid, regional vascularity, permeability and tissue calcium concentration [3]. Metastatic calcification and heterotopic bone formations are the most common causes. In the case reported here, incidentally detected cardiac calcinosis in a patient with chronic kidney failure undergoing hemodialysis is presented.

Case Report

A 65-year old female patient who had been undergoing hemodialysis due to chronic kidney failure for two years was admitted to hospital with back pain that had been ongoing for one month. A lumbar spine radiograph was taken and a height loss of the L5 vertebra was observed. Osteomyelitis-like infectious etiologies were considered in L5 vertebra and L4-5 disc space from magnetic resonance imaging (MRI). The patient was referred to the Nuclear Medicine Department for three phase bone scintigraphy with a pre-diagnosis of osteomyelitis. The biochemical parameters of the patient were as follows: BUN: 101 mg/dL (N: 17-43 mg/dL) and creatinine: 5.8 mg/dL (N: 0.81-1.44 mg/dL), Ca: 9.3 mg/dL (N: 8.8-10.6 mg/dL), corrected Ca: 9.94, P: 6.5 mg/dL (N: 2.5-3.5 mg/dL), Mg: 0.8 mmol/L (N: 0.73-1.06 mmol/L), PTH: 129 pg/ml (N: 10-60 pg/ml), Na 137 mmol/L (N: 135-150 mmol/L), K: 5.5 mmol/L (N: 3.5-5 mmol/L). Serum CPK, ALT, AST, LDH levels were within normal limits. The left atrium was dilated and calcification focus was not detected on the chest X-Ray. There was no pathology in the ECG. Left ventricle hypertrophy and left atrial dilatation were detected with echocardiography. Informed consent was obtained from the patient and 740 mBq (20 mCi) Tc99m HDP was injected. After a 10-minute waiting period following the injection, early whole body blood pool images were taken. Anterior and posterior late whole body and static images were taken two hours later. Hyperemia and increased activity accumulation were observed in the L5 vertebra, left superior pubic ramus and superior pubic region in the early and late images [Figure 1]. Diffuse myocardial uptake of Tc99m HDP was also detected in the late images [Figure 1c and 2a]. There was no pathological activity accumulation in other soft and visceral tissues. The activity accumulation had disappeared in the 24-hour images [Figure 2b]. No abnormality was detected in the quality control testing and there was no unexpected abnormal finding in other patients, which excluded the possibility of unattached radiopharmaceuticals.

Discussion

Technetium99m hydroxymethylene diphosphonate is used for the evaluation of skeletal system pathologies. Soft tissue uptake is a rare finding with an incidence of 2% [2]. Extra-skeletal uptake of bone radiopharmaceuticals provides important information to identify the specific clinical situations and achieve

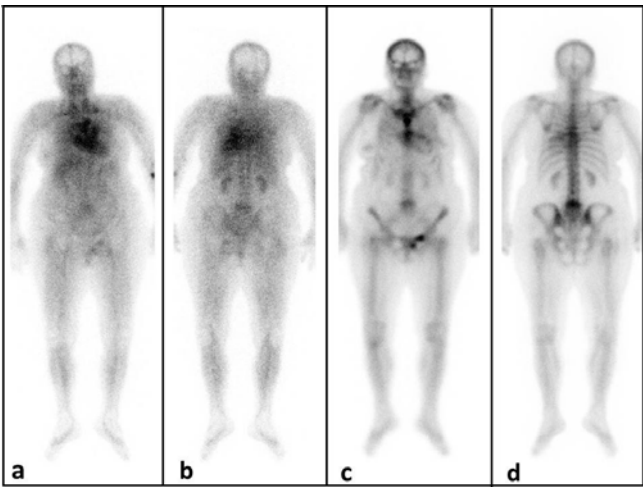


Figure 1. Myocardial 99mTc-HDP accumulation in anterior (A) and posterior (B) early whole body blood pool images, anterior (C) and posterior (D) late whole body images.

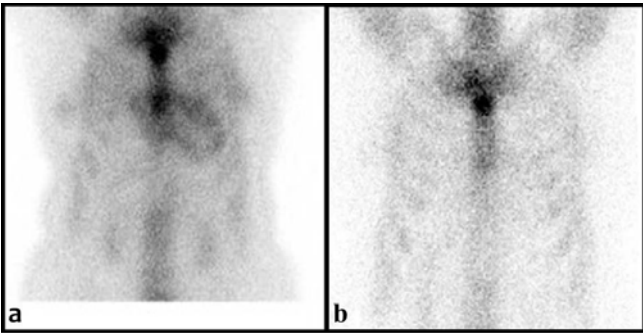


Figure 2. Diffuse myocardial uptake of Tc99m- HDP was seen in 2-hour anterior statik image (A) the cardiac accumulation disappeared in 24-hour anterior statik image (B).

the correct differential diagnosis [4]. Many disease and causes have been reported for this unexpected pattern although the mechanism of uptake has not yet been fully elucidated. The most common accepted mechanism is the chemoabsorption of bone radiopharmaceutical to hydroxiapatite crystals and calcium salts [5]. Cardiac calcinosis, which includes calcified heart valve disease, metastatic calcification, hemodialysis cardiomyopathy and aortic calcification in long term hemodialysis patients, is a common and life threatening complication. In addition, this phenomenon is closely associated with atherosclerotic cardiovascular disease and venous thromboembolism. Therefore, early diagnosis and treatment of cardiac calcinosis is life saving. Eguchi et al mentioned that bone scintigraphy is a non-invasive method for the diagnosis and treatment of cardiac calcinosis [6]. Isolated myocardial uptake of bone radiopharmaceuticals is rare in hemodialysis patients and is usually accompanied by soft tissue and other visceral organ uptake [7, 8]. Isolated and/or diffuse myocardial uptake can be seen in other diseases and situations such as multiple myeloma, amyloidosis, primary/secondary hypercalcemia, primary/secondary hyperparathyroidism, metastatic calcification, uremic pericarditis, malignant pericardial effusion/calcification, myocardial contusion and cardiac valve calcification [9]. To the best of our knowledge, there is no data about the disappearance of the myocardial uptake in the 24th hour. Myocardial uptake has been reported to be accompanied by soft tissue and visceral organ involvement in similar cases in literature [6-10]. In the current case, while diffuse myocardial uptake of Tc99m

HDP was seen in 2-hour anterior statik image [Figure 2a] the cardiac accumulation disappeared in 24-hour anterior statik image [Figure 2b] and there was no other soft tissue uptake. Other causes of diffuse cardiac uptake were excluded with the medical history, laboratory and echocardiographic findings. The diffuse myocardial uptake was considered to be cardiac calcinosis as has been reported in similar cases in literature.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Kaye J, Hayward M. Soft tissue uptake on 99mTc methylene diphosphonate bone scan imaging: pictorial review. *Australas Radiol.* 2002;46:13-21.
2. Gentili A, Miron SD, Bellon EM. Nonosseous accumulation of bone-seeking radiopharmaceuticals. Review. *Radiographics.* 1990;10:871-81.
3. Peller PJ, Ho VB, Kransdorf MJ. Extraosseous Tc-99m MDP uptake: a pathophysiologic approach. *Radiographics.* 1993;13:715-34.
4. Tuncel M, Erbas B, Mahmoudian B. Gamut: soft tissue uptake of bone radiopharmaceuticals. *Semin Nucl Med.* 2003;33:334-7.
5. Janowitz WR, Serafini AD. Intense myocardial uptake of 99mTc-diphosphonate in a uremic patient with secondary hyperparathyroidism and pericarditis: case report. *J Nucl Med.* 1976;17:896-8.
6. Eguchi M, Tsuchihashi K, Takizawa H, Nakahara N, Hagiwara M, Ohnishi H, et al. Detection of cardiac calcinosis in hemodialysis patients by whole-body scintigraphy with 99m-technetium methylene diphosphonate. *Am J Nephrol.* 2000;20:278-82.
7. Braga FJ, Miranda JR, Lucca LJ, Garcia TM, Ferraz AS. Heart and lung accumulation of Tc-99m MDP with normal radiographs in patients undergoing hemodialysis. *Clin Nucl Med.* 2000;25:377-8.
8. Soni S, Leslie WD. Bone scan findings in metastatic calcification from calciphylaxis. *Clin Nucl Med.* 2008;33:502-4.
9. Demirel K, Sadic M, Korkmaz M, Comak A, Atilgan HI, Koca G. "Diffuse Myocardial Uptake of 99mTc-HDP in Multiple Myeloma." *Nuclear Medicine and Molecular Imaging* 2013;47:208-11.
10. Sahin A, Seven B, Yildirim M, Varoglu E. Heart and soft-tissue uptake of Tc-99m MDP in a hemodialysis patient. *Clin Nucl Med.* 2004;29:854-5.

How to cite this article:

Sadiç M, Atilgan Hİ, Koca G, Demirel K, Korkmaz M. Diffuse Myocardial Tc99m HDP Uptake in a Hemodialysis Patient: A Rare Case. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 2): 211-3.



MRI Findings of Congenital Bilateral Lacrimal Gland Agenesis in a Patient with Blepharophimosis Syndrome

Blefarofimozis Sendromlu Bir Hastada Konjenital Bilateral Lakrimal Gland Agenezisinin MRG Bulguları

Blefarofimozis Sendromu / Blepharophimosis Syndrome

Harun Arslan¹, Metin Saylık²

¹Radyoloji Bölümü, ²Göz Hastalıkları Bölümü, Van Bölge Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Van, Türkiye

Özet

Blefarofimozis sendromu ve lakrimal bezi agenezisi birlikteliği son derece nadir bir durumdur. Blefarofimozis genellikle bir genetik bozukluk olup, otozomal dominant kalıtımla geçiş göstermektedir. Edinsel formu konjunktiva ya da gözkapağı kenarının kronik enfeksiyonlarının bir sonucu olarak oluşabilir. Lakrimal bez agenezisi bazen diğer lakrimal sistem bozuklukları ile beraberdir. Bu bozukluklar, tükürük bezi agenezisi ve lakrimal puncta ve kanalikülleri tıkaçıcı anormallikleri kapsamaktadır. Tanı klinik ve radyolojik bulgular sonucunda konulur. Burada biz, konjenital bilateral lakrimal gland agenezisi ile ilişkili blefarofimozis sendromlu nadir bir olgunun manyetik rezonans görüntülerini (MRG) bulgularını literatür eşliğinde sunuyoruz.

Anahtar Kelimeler

Blefarofimozis Sendromu; Lakrimal Gland; Agenezi; MRG Bulguları

Abstract

Blepharophimosis syndrome and lacrimal gland agenesis association is an extremely rare condition. Blepharophimosis is usually a genetic disorder showing autosomal dominant inheritance. acquired forms may occur as a result of chronic infections of conjunctiva and eyelid margins. Lacrimal gland agenesis is sometimes associated with other lacrimal system disorders. These disorders may include agenesis of the salivary gland and obstructive anomalies of the lacrimal puncta and canaliculi. The diagnosis is put by the clinical and radiological findings. We present magnetic rezonans(MRI) findings of a rare case of blepharophimosis syndrome associated with congenital bilateral lacrimal gland agenesis, with a review of literature.

Keywords

Blepharophimosis Syndrome; Lacrimal Gland; Agenezi; MRI Findings

DOI: 10.4328/JCAM.2227

Received: 11.12.2013 Accepted: 22.12.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 214-6

Corresponding Author: Harun Arslan, Van Bölge Eğitim ve Araştırma Hastanesi Radyoloji Bölümü, Van, Türkiye.

E-Mail: harun.ars75@gmail.com

Giriş

Blefarofimozis sendromu (BPES) konjenital bir hastalıktır. Daha sonraki yıllarda bu hastalığın ailesel olabileceği ve otozomal dominant geçişli olduğu bildirilmiştir. Blefarofimozis-pitozis-epikantus inversus kompleksi bir gözkapığı bozukluğudur. Diğer göz anomalileri ile birlikteliği sıktır. Ancak BPES ve bilateral konjenital lakrimal gland agenezisi birlikteliği literatürde oldukça nadirdir[1-2]. 13 yaşındaki erkek olgumuzda BPES ve bilateral konjenital lakrimal gland agenezisi birlikteliğini nadir olduğundan MRG bulgularını literatür eşliğinde sunmayı amaçladık.

Olgu Sunumu

Hastanemiz göz polikliniğine gözlerde yanma, kaşıntı, kızarıklık ve bulanık görme şikayeti ile başvuran erkek çocuk hastada blefarofimozis sendromu ile birlikte ayrıca bilateral kuru göz ve buna bağlı olarak fluoresseinle boyanan, yaygın korneal punktat epitel defektleri mevcuttu. Bu epitel defektlerine bağlı olarak görme bulanıklığı (sağ vizyon 50/100, sol vizyon 40/100) vardı. Bunun üzerine klinisyen tarafından lakrimal glandlara yönelik Orbital MRG istendi. Çekilen Orbital MRG de T2 aksiyel ve Yağ baskılı kontrastlı aksiyel T1AG ve T1A koronal görüntülerde bilateral lakrimal glandlar izlenmedi (şekil 1,2,3). Klinisyen tarafın-



Şekil 1. Koronal T1AGler her iki lakrimal gland izlenmiyor



Şekil 2. Yağ baskılı AKSİYEL T2AGler her iki lakrimal gland izlenmiyor



Şekil 3. Kontrastlı yağ baskılı Aksiyel T1AG ler: her iki lakrimal gland izlenmiyor

dan hastaya konservatif olarak yoğun suni göz yaşı ve merhem tedavisi başlatılmış ancak hasta da belirtilerde hafifleme izlenmemiştir.. Bunun dışında hastaya herhangi bir cerrahi girişim yapılmadı. Hasta genetik inceleme için bir üst araştırma merkezine gönderilmiştir.

Tartışma

Blefarofimozis sendromu (BPES) ilk olarak Von Ammon tarafından 1841 yılında kısa horizontal kapak aralığı şeklinde tanımlansa da, blefarofimozis-pitozis-epikantus inversus (BPES) üçlemesi şeklinde hastalığı tanımlayan 1889 yılında Vignes olmuştur. Daha sonraki yıllarda bu hastalığın ailesel olabileceği ve otozomal dominant geçişli olduğu bildirilmiştir. 1971 yılında Kohn bu üç bulguya telekantusu eklemiştir[2]. Blefarofimozis-pitozis-epikantus inversus kompleks bir gözkapığı bozukluğudur. Daralmış horizontal kapak aralığı en belirgin bulgu olarak ortaya çıkar. Levator aponevrozundaki displazi nedeni ile bilateral, simetrik ve ciddi bir pitosis mevcuttur. Telekantus bu bulgulara eşlik eder. Blefarofimozis-pitozis-epikantus inversus'da rastlanan diğer göz bulguları şaşılık, mikroftalmi, gözyaşı yollarında bozukluk, nistagmus, karünkülde hipoplazi ve optik disk kolobomu olarak sıralanabilir. Bu hastalarda şaşılık ve ambliyopi sıklıkla normal nüfusa kıyasla daha yüksek saptanmıştır[3-4]. Bizim vakamızda da bu bulgular vardı. Blefarofimozis-pitozis-epikantus inversus'de rastlanan diğer göz bulguları şaşılık, mikroftalmi, gözyaşı yollarında bozukluk, nistagmus, karünkülde hipoplazi ve optik disk kolobomu olarak sıralanabilir. Bu hastalarda şaşılık ve ambliyopi sıklıkla normal nüfusa kıyasla daha yüksek saptanmıştır[3]. Bizim vakada çekilen MRG lerde bilateral lakrimal glandlar izlenmedi. BPES birçok oftalmik ve sistemik anormallikler ile ilişkili olmasına rağmen lakrimal gland agenezisi birlikteliği literatürde oldukça nadirdir[5-6]. Bizim vakamızda BPES ve bilateral lakrimal gland yokluğu birlikteliği vardı. Konjenital gözyaşı bezi agenezisi çocukluk kuru göz sendromunun nadir görülen bir nedenidir. Alakrima veya lakrimal gland agenezisi oldukça nadirdir. Literatürde lakrimal gland agenezisi ve yokluğu çok az yayın vardır. LADD (lacrimo-auriculo-dental-digital syndrome) sendromlu hastalarda lakrimal gland agenezileri bildirilmiştir[5-6-7]. Lakrimal bezi agenezisi izole bir du-

rum olarak ortaya çıkabilir ya da lakrimal drenaj sisteminin tükürük bezi agenezisi ve atrezi eşlik edebilir. Alakrimada kornea ülseri ve perforasyonu gelişme riski vardır[8]. Bizim vakamızda tükürük bezi üretiminde ve ağızda herhangi bir sıkıntı yoktu. Lakrimal bezi intrauterin yaşamın ikinci ayın sonunda alt göz kapağında gelişmeye başlar. Orbital ve palpebral parçaları beşinci ayda oluşur, ancak tam farklılaşma doğumdan sonra üç ila dört yılda meydana gelir. Bu nedenle, çok erken intrauterin hayatta herhangi bir düzensizlik gözyaşı bezi agenezisine neden olabilir. Kuru göz sendromu çocuklarda nadir bir tanıdır. Bu hastalık kemik iliği nakli sonrası graft-versus-host hastalığı, Sjögren sendromu, Riley-Day sendromu, ektodermal displazi sendromları, konjenital ince barsak atrezisi gibi sistemik hastalıklar ile ilişkili olabilir[9,10]Bizim vakamızda sistemik bir hastalık saptanmadı.

Sonuç

BPES, alacrima ve Konjenital lakrimal bez agenezi birlikteliği oldukça nadir bir durumdur. Bunlara ek olarak hastalarda oküler ve kardiyak anomaliler, gelişme geriliği görülebilir. Kuru göz semptomları ile baş vuran BPES li hastalarda lakrimal gland yokluğu araştırılmalıdır. Herhangi bir sistemik bulgu olmadan kuru göz sendromu olan çocuklarda orbital MRG non invaziv ve tanısal değeri oldukça yüksek bir modelite olup klinisyenlerce ilk düşünülmesi gereken radyolojik görüntüleme yöntemi olmalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Geetha K, Athappilly and Rebecca Sands Braverman, Congenital Alacrima in a Patient with Blepharophimosis Syndrome. Ophthalmic Genetics, 30:37–39, 2009
2. Kohn R. Blepharoptosis, blepharophimosis, epicanthus inversus, and telecanthus a syndrome with no name. Am J Ophthalmol. 1971;72:625–32.
3. Dawson EL, Hardy TG, Collin JR, Lee JP. The incidence of strabismus and refractive error in patients with blepharophimosis, ptosis and epicanthus inversus syndrome (BPES). Strabismus. 2003;11:173–7.
4. Choi KH, Kyung S, Oh SY, et al. The factors influencing visual development in blepharophimosis-ptosis-epicanthus inversus syndrome. J Pediatric Ophthalmol Strabismus. 2006;43:285–288.
5. Inan UU, Yilmaz MD, Demir Y, Degirmenci B, Ermis SS, Ozturk F. Characteristics of lacrimo-auriculo-dento-digital (LADD) syndrome: Case report of a family and literature review. [Review] [24 refs] [Case Reports. Journal Article. Review] Internl Ped Otorhinolaryngol. 2006;70(7):1307–1314.
6. Kim SH, Hwang S, Kweon S, Kim TK, Oh J. Two cases of lacrimal gland agenesis in the same family—clinicoradiologic findings and management. [Case Reports. Journal Article] Can J Ophthalmol. 2005;40(4):502–505.
7. Kim SH, Hwang S, Kweon S, Kim TK, Oh J. Two cases of lacrimal gland agenesis in the same family—clinicoradiologic findings and management. [Case Reports. Journal Article] Can J Ophthalmol. 2005;40(4):502–505.
8. Ferreira AP, Gomez RS, Castro WH, Calixto NS, Silva RA, Aguiar MJ. Congenital absence of lacrimal puncta and salivary glands: Report of a Brazilian family and review. Am J Med Genet. 2000;94:32–4.
9. Mac Cord Medina F, Silvestre de Castro R, Leite SC, Rocha EM, de Melo Rocha G. Management of dry eye related to systemic diseases in childhood and longterm follow-up. Acta Ophthalmol Scand. 2007;85:739–44.
10. Murat Terzi, Yakup Türkel, Tuba Yazıcı, Tülay Terzi. Santral Sinir Sistemi Tutulumu ile Prezente Olan Sjögren Sendromu. J Clin Anal Med 2012;3(1):94–6

How to cite this article:

Arslan H, Saylık M. MRI Findings of Congenital Bilateral Lacrimal Gland Agenesis in a Patient with Blepharophimosis Syndrome. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 214–6.



Magnetic Resonance Imaging Findings of a Case with Orbital Cavernous Hemangioma

Orbital Kavernöz Hemanjiomlu Bir Olgunun Magnetik Rezonans Görüntüleme Bulguları

Orbital Kavernöz Hemanjiomlu / Orbital Cavernous Hemangioma

Harun Arslan¹, Metin Saylık²

¹Radyoloji Bölümü, ²Göz Hastalıkları Bölümü, Van Bölge Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Van, Türkiye

Özet

Kavernöz hemanjiomlar erişkinde en sık görülen benign vasküler orbital tümörlerdir. Yavaş büyüme eğilimindedirler. Kavernöz hemanjiomlar klinik olarak ağrısız proptozis ile karakterizedir. Orbital kavernöz hemanjiomların orijini ve mekanizması belli değildir. Genellikle tek taraflı soliter tümörler olarak görülürler. Biz bu olguda 48 yaşında bayan hastada sağ gözde intrakonal yerleşimli orbital kavernöz hemanjiomun manyetik rezonans görüntüleme bulgularını literatür eşliğinde sunuyoruz.

Anahtar Kelimeler

Kavernöz Hemanjiom; Magnetik Rezonans Görüntüleme; Orbita

Abstract

Cavernous hemangiomas are the most common benign vascular orbital tumors in adults. They show tendency to grow slowly. Cavernous hemangiomas characterized by painless proptosis clinically. The origin and mechanism of orbital cavernous hemangioma is not clear. They are often seen as unilateral solitary tumors. In this case we presented magnetic resonance imaging findings of 48 year-old female patient with intraconally located orbital cavernous hemangioma at the right eye, with a literature review.

Keywords

Cavernous Hemangiomas; Magnetic Resonance Imaging; Orbital

DOI: 10.4328/JCAM.2228

Received: 11.12.2013 Accepted: 22.12.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 217-9

Corresponding Author: Harun Arslan, Van Bölge Eğitim ve Araştırma Hastanesi Radyoloji Bölümü, Van, Türkiye.

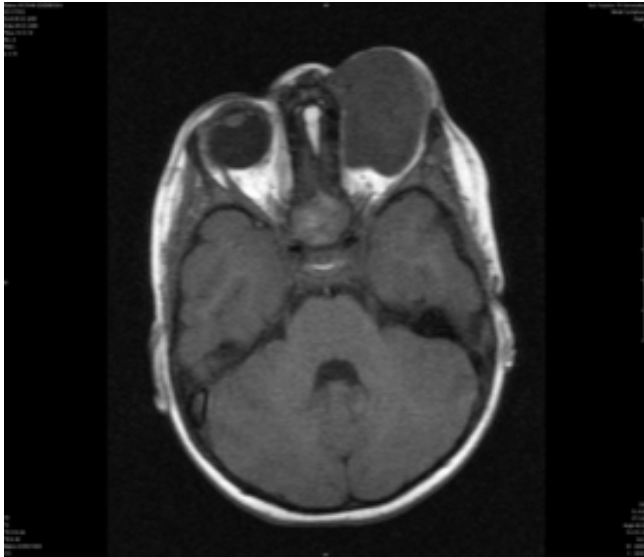
E-Mail: harun.ars75@gmail.com

Giriş

Kavernöz hemanjiomlar nadir görülen vasküler malformasyonlar olup erişkinlerde en sık görülen benign primer orbital neoplazmlardır. Tipik olarak orta yaş kadınlarda tek taraflı ilerleyici proptozisle kendini gösterir [1-2]. Kendine özgü klinik ve histopatolojik özellikleri vardır. Bu lezyonlar magnetik rezonans görüntüleme (MRG) özellikleri ile kolaylıkla tanınabilirler. Ağrısız proptozis semptomlarıyla başvuran olgularda orbital kavernöz hemanjiom ilk olarak düşünülmesi gereken lezyonlardandır. Bu yazıda ilerleyici proptozisi olan kadın olgunun MRG bulgularını literatür eşliğinde sunmayı amaçladık.

Olgu Sunumu

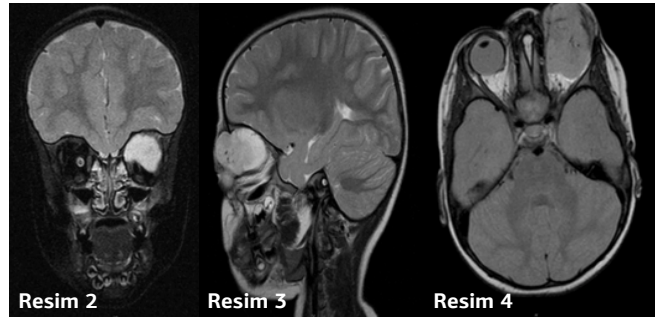
48 yaşındaki bayan olgu sol göz küresinde dışa doğru büyüme şikayetiyle hastanemiz göz polikliniğine başvurdu. Yapılan göz muayenesinde sol gözde gözü dışa ve aşağıya doğru deviyeden proptozis mevcuttu. Diplopi şikayeti mevcuttu. Görme keskinliği sol gözde tamdı. Dilate fundus muayenesinde patoloji saptanmadı. Gözde dışa doğru büyüme şikayetinin yaklaşık 8 yıldan beri var olup yavaş yavaş ilerlediği öğrenildi. Tiroid fonksiyon testleri, tam kan ve biyokimyasal parametreler normal sınırlardaydı. Proptozisi açıklamaya yönelik orbital MRG yapıldı. MRG'de sol gözde retrobulber bölge lateralinde, intrakonal yerleşimli, optik siniri mediale doğru deplase eden, lateral rektus kasında itilmeye neden olan aksiyalde görüntülerde 22x20mm ölçülen düzgün konturlu ovoid lezyon dikkati çekti. Lezyon T1 ağırlıklı (T1A) sekansta hipointens olup hafif derecede iç yapısı heterojendi (Resim 1). T2 ağırlıklı (T2A) sekansta (Resim 2,3,4) ve yağ baskılı T2 ağırlıklı imajlarda (Resim 3) lezyon çevre yumuşak dokulara göre hiperintens görünümdeydi. Lezyon içerisinde kontrastsız sekanslarda izlenen çok sayıda vasküler yapılarla uyumlu küçük sinyal kayıp alanları mevcuttu. Ayrıca tüm sekanslarda lezyon çevresinde hipointens izlenen kapsülle uyumlu görünüm dikkati çekti, görüntüleme özellikleri nedeniyle lezyona radyolojik olarak kavernöz hemanjiom ön tanısı koyduk. Histopatolojik sonuçlarda da hemanjiom tanısı kesinleşti (Resim 5)



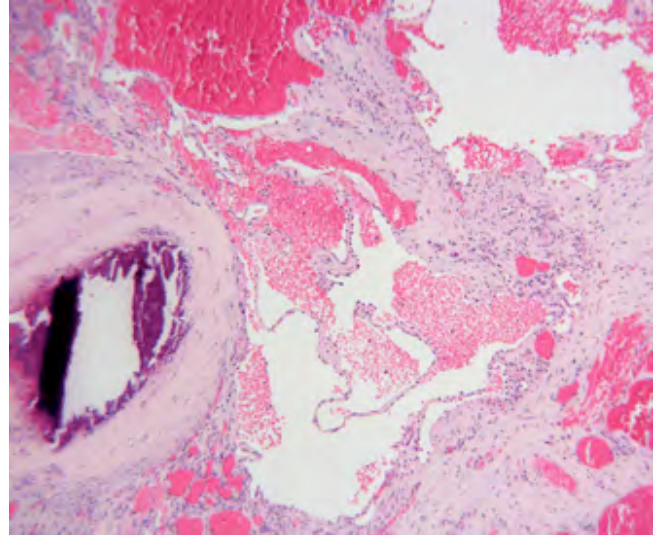
Resim 1. T1 Ağırlıklı görüntülerde sol orbitada hipointens kitle

Tartışma

Kavernöz hemanjiomlar erişkinlerde en sık görülen benign pri-



Resim 2. 3. 4. T2 Ağırlıklı görüntülerde retroorbital bölgede hiperintens kitle lezyon



Resim 5. Kavernöz Hemanjiom

mer orbital neoplazmlar olup kadınlarda daha sık görülür. Yaşamın 5. dekadında pik yaparlar [3-4-5]. Tipik olarak orta yaş kadınlarda ilerleyici, ağrısız proptozise sebep olur [6]. Lezyonlar %80-82 oranında intrakonal yerleşim göstermekle birlikte, %18 olguda ekstrakonal yerleşimlidir [7]. Orbital kavernöz hemanjiomların orijini ve mekanizması belli değildir. Bazı yazarlar bu lezyonların edinsel olduğunu öne sürmüşlerdir [7]. Diğer bazı yazarlar ise muhtemelen daha önce var olan vasküler hamartomun intrapapiller endotelial hiperplaziye yavaş büyümesi sonucu ortaya çıktığını savunmuşlardır [8]. Kavernöz hemanjiomlar dilate ve tortuöze endotel ile kaplı vasküler kanallar içerirler. Vasküler alandaki kanın akım hızına ve türbülansına bağlı olarak bu vasküler kanallar tromboze olabilirler [9,10]. Hastaların çoğunda en sık başvuru nedeni pulsatif olmayan ağrısız ilerleyici proptozistir [2]. Glob arkasından kitlenin basısı nedeniyle hiperopia, orbital kasların yer değiştirmesine bağlı olarak göz hareketlerinde kısıtlılık izlenebilir. Optik sinir basısı ve/veya bası nedeniyle oluşan kan akımındaki azalmaya bağlı olarak görme alanı defektleri oluşabilir [11]. Bizim olgumuzda da başvuru nedeni ağrısız ilerleyici proptozisti ancak görme alanında defekt izlenmedi. Kadının cinsiyet, gebelik ve sistemik hemanjiomatozis risk faktörleri olarak sıralanmaktadır. Orta yaş kadınlarda sık olması ve gebelik sırasında büyümesi hormonal etkilenmeyi düşündürmektedir [2]. Kavernöz hemanjiomların multifokal ve bilateral olması oldukça nadirdir. Bu durumlarda blue rubber bleb nevus sendromu, multiple encondromatozis ve yumuşak doku hemanjiomları ile ilgili diğer sendromlardaki kutanöz ve visseral lezyonlarla birlikte görülebilir [12]. Orbital kavernöz hemanjiomun MRG bulguları tipiktir. Karakteristik MRG bulguları T1A sekanslarda eks-

traokuler kaslara göre izointens ve orbital yağ dokuya oranla hipointensdir. T2A imajlarda ekstraoküler kaslara göre hiperintens izlenir. Bu görünüm yavaş kan akımına ve lezyondaki artmış sıvı içeriğine bağlıdır [4].Eğer lezyon hemosiderin içeriyorsa T2A görüntülerde azalmış sinyal intensitesi şeklinde izlenebilir. Tüm sekanslarda lezyon çevresinde periferel çizgi şeklindeki hipointens görünüm lezyonun fibröz kapsülünü temsil eder. Kontrast madde enjeksiyonunu takiben erken alınan kesitlerde yamalı tarzda kontrastlanma izlenirken, geç dönemde yoğun homojen kontrastlanma dikkati çeker[2].Tanımlan MRG bulgularının tamamı olgumuzda mevcut olup, olguya bu bulgular ışığında radyolojik olarak kavernöz hemanjiom tanısı koyduk. Ayırıcı tanı nörofibrom, hemanjioperisitom, schwannom, histiositom gibi düzgün sınırlı lezyonlar ile yapılmalıdır. Ancak kontrastlı kesitlerde lezyonun erken arterial fazda yamalı tarzda kontrast tutması ve geç dönemde homojen yoğun kontrastlanma göstermesi orbital kavernöz anjiom tanısı için spesifik olabilir[2].Kavernöz hemanjiomun tanısında BT’de kullanılmaktadır.BT’ de iyi sınırlı kemik erozyonuna yol açmayan ve kalsifikasyon içermeyen homojen kitle lezyon hemanjiom için tipiktir[5].Ancak MRG multiplanar olması, doku sinyal intensitelerinin karakteristik farklılığını gösterebilmesi, orbital anatomiye daha net ortaya koyması ve lezyondaki hemosiderini gösterebilmesi nedeniyle BT’ye üstündür.Cerrahi tedavi optik sinir basısı olan semptomatik vakalarda endikedir, asemptomatik vakalar klinik ve radyolojik olarak takip edilmektedir [7-13].

Sonuç olarak; Orbital kavernöz hemanjiomlar MRG özellikleriyle tanı konabilen lezyonlar olup erişkinde kemozis ve propitozis- le gelen hastalarda ilk akla gelmesi gereken orbital lezyonlardır. Bu lezyonlarda MRG’nin esas rolü,lezyon ile optik sinir ve diğer orbital yapıların ilişkisini değerlendirmek ve bu lezyonların tanı ve takibinde seçilebilecek primer görüntüleme yöntemi olmasıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Ruchman MC, Flanagan J. Cavernous hemangiomas of the orbit. Ophthalmology 1983; 90: 1328-1336.
2. Thorn-Kany M, Arrue P, Delisle MB et al. Cavernous hemangiomas of the orbit: MR imaging. J Neuroradiol 1999;26: 79-86.
3. Günalp I, Gündüz K. Vascular tumors of the orbit. Doc Ophthalmol 1995; 89: 337-345.
4. Acciarri N, Giulioni M, Padovani R, et al. Orbital cavernous angiomas: surgical experience on a series of 13 cases. J Neurosurg Sci 1995; 39: 203-209.
5. McNab AA, Wright JE. Cavernous haemangiomas of the orbit. Aust N Z J Ophthalmol 1989; 17: 337-345.
6. Schick U, Dott U, Hassler W. Surgical treatment of orbital cavernomas. Surg Neurol 2003; 60: 234-244.
7. Harris GJ, Jakobiec FA. Cavernous hemangioma of the orbit. JNeurosurg 1979; 51: 219-228.
8. Garner A. Cavernous hemangioma of the orbita consideration of its origin and development. Orbit 1988; 7: 149-156.
9. Bilaniuk LT. Orbital vascular lesions. Role of imaging. Radiol Clin North Am 1999; 37: 169-83.
10. Melek H,Atakul D, Özlücan O , Gürbüz M, Torun T , Medetoğlu B. Musculus Lattissimus Dorsi İçerisinde Hemanjiom, Çok Nadir Göğüs Duvanı Tümörü J Clin Anal Med 2011;2(2):49-51
11. Orhan S, Durak AC, Mavili E, Akdemir H. MRI findings of orbital hemangiomas. Tani Girişim Radyol 2004; 10: 26-30.
12. Paonessa A, Limbucci N, Gallucci M. Are bilateral cavernous hemangiomas of the orbit rare entities? The role of MRI in a retrospective study. Eur J Radiol 2008; 66: 282-286.
13. Acciarri N, Padovani R, Giulioni M et al. Intracranial and orbital cavernous angi-

omas: a review of 74 surgical cases. Br J Neurosurg 1993; 7: 529-539.

How to cite this article:

Arslan H, Saylık M. Magnetic Resonance Imaging Findings of a Case with Orbital Cavernous Hemangioma. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 217-9.



Late Onset Subacute Sclerosing Panencephalitis: Presenting Psychosis

Psikoz ile Prezente olan Geç Başlangıçlı Subakut Sklerozan Panensefalit

Geç Başlangıçlı Subakut Sklerozan Panensefalit / Late Onset Subacute Sclerosing Panencephalitis

Yavuz Altunkaynak, Zerrin Yıldırım, Devrimsel Harika Ertem, Ayten Ceyhan Dirican, Sevim Baybaş
Bakırköy Ruh ve Sinir Hastalıkları Hastanesi Nöroloji Kliniği, İstanbul, Türkiye

Özet

Subakut Sklerozan Panensefalit (SSPE), nöbet, miyokloni, ataksi, davranışsal ve kişilik değişiklikleri, ekstrapiramidal sistem bozuklukları ve görme sorunlarının eşlik ettiği kızamık hastalığının uzun dönem komplikasyonu olan bir hastalıktır. Bu yazıda atipik psikotik bozukluk teşhisiyle psikiyatri polikliniğinde takip edilmiş 19 yaşında kadın olgu sunulmuştur. Psikiyatrik bulguları baskın olan bu hasta SSPE tanısı almıştır.

Anahtar Kelimeler

Subakut Sklerozan Panensefalit; Psikoz

Abstract

Subacute Sclerosing Panencephalitis (SSPE) is the late complication of measles and is characterized by seizures, myoclonus, ataxia, behavioral and personality changes, extrapyramidal dysfunctions and vision problems. A 19 year old female patient with SSPE who was followed up at psychiatry clinic with the diagnosis of atypical psychotic disorder was presented. While psychiatric signs and symptoms were dominant, she was diagnosed as SSPE.

Keywords

Subacute Sclerosing Panencephalitis; Psychosis

DOI: 10.4328/JCAM.2163

Received: 17.11.2013 Accepted: 30.12.2013 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 220-2

Corresponding Author: Devrimsel Harika Ertem, Bakırköy Ruh ve Sinir Hastalıkları Hastanesi Nöroloji Kliniği Bakırköy, İstanbul, Türkiye.

GSM: +905301428876 E-Mail: hkaozhan@gmail.com

Introduction

SSPE is a progressive central nervous system disease caused by a defective measles virus [1]. Although it mostly occurs during childhood and early adolescence, several late-onset SSPE cases were also reported in the literature [2-4]. The course of disease is divergent. Clinical features include behavioral or personality changes, progressive mental demolition, myoclonus, focal or generalized seizures, extrapyramidal dysfunctions and vision disorders [5]. The disease may be presented atypically and may show difficulties in diagnose.

In this case report, we presented a 19-year old female patient who had admitted to psychiatry clinic due to psychotic symptoms and followed up with a diagnosis of atypical psychotic disorder. In the following period, neurologic symptoms developed and the patient was referred to our neurology department. After a complete examination and laboratory investigation, electroencephalography (EEG) and cerebrospinal fluid (CSF) findings verified SSPE diagnosis.

Case Report

A 19-years-old female patient had admitted to psychiatry clinic due to behavioral changes, anxiety, aggressive behavior, emotional lability and received antipsychotic treatment with a diagnosis of atypical psychotic disorder. She had sudden falling attacks 1-year before her admittance to psychiatry but she had not mentioned about this complaint to the doctor. Under treatment, her psychiatric symptoms partially relieved but the frequency of fallings increased. Then she was referred to our department for neurologic examination and evaluation. On physical examination, there were several scars on the patellar skin bilaterally. Neurological examination revealed ataxia, generalised myoclonic jerks, decreased deep tendon reflexes, and positive Babinski reflex. She had intellectual deterioration and behavioral changes.

Routine laboratory investigations included hemogram, sedimentation, biochemistry, liver function tests, complete urine tests, Vitamin B12 level, Syphilis, HIV, chest x-ray, electrocardiography. No pathologic finding was found. Cranial magnetic resonance imaging (MRI) showed hyperintense lesions at the subcortical white matter of both cerebral hemispheres [Figure 1]. EEG showed slow wave paroxysms in both hemispheres, sleep-induced generalized epileptiform discharges and left frontal-central neuronal hyperexcitability [Figure 2]. The CSF immunological study tested positive for IgG measles antibody in 20.6 titers (Normal value range is between 0-3.4).

A diagnosis of SSPE was made based on clinical and EEG findings and laboratory tests. Isoprinosine treatment was given and valproic acid was added to control fallings.

In the first year of treatment the patient was immobile and dependent medical care.

Discussion

In this paper, we report an 19-year-old female SSPE patient presenting with personality and behavioral changes, MRI and EEG findings, and high antibody levels in serum and CSF. In literature, there are previous cases presenting with atypical findings such as ataxia, encephalopathy, and vision loss [5]. The disease is characterized by seizures, myoclonus, ataxia, be-

havioral and personality changes, extrapyramidal dysfunctions and vision problems. In the literature SSPE cases presenting with psychiatric symptoms such as first episode schizophrenia, young-onset dementia were rarely reported [2,6,7,8,9,10,11]. It mostly occurs during childhood and early adolescence. The disease onset after 18 is rare. Several late-onset SSPE cases were also reported in the literature [2,4,9]. In our case it is remarkable that the disease onset was 19.

Psychotic symptoms and emotional lability of our patient together with ignored falling episodes led to admittance to psychiatry clinic and had delayed the diagnosis and treatment. Rare presentation of SSPE with psychiatric symptoms and late-onset of the disease might be the reason.

Despite vaccinating programs, SSPE is still a problem in our country and other developing countries. Therefore, diagnosing atypical symptoms in the early period may be important in disease course.

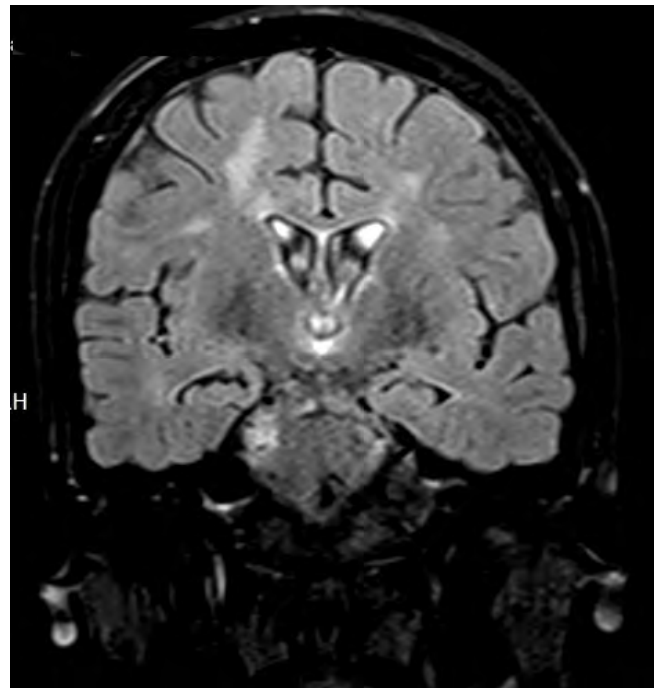


Figure 1. Bilateral subcortical white matter abnormalities on FLAIR sequence



Figure 2. Bilateral slow wave paroxysms, sleep-induced generalized epileptiform discharges and left frontal-central neuronal hyperexcitability on EEG

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. J. David Beckham, Marylou V. Solbrig, Kenneth L. Tyler. Bradley's Neurology in Clinical Practice, 6th ed Chapter 53B – Infections of the Nervous System : Viral Encephalitis and Meningitis; p:1254.
2. Tombul T, Anlar Ö, Sayın R, Beşiroğlu L, Dizkırı A. Geç Başlangıçlı ve Atipik Seyirli Bir SSPE Olgusu. Van Tıp Dergisi 2005; 12 (4):248-51.
3. Vilas D, Becerra JL, Lozano M, Soriano A, Matas L, Martro E, Dávalos A. Atypical presentation of adult-age onset subacute sclerosing panencephalitis Rev Neurol. 2012;1;54(1):60-1.
4. Singer C, Lang AE, Suchowersky O. Adult-onset subacute sclerosing panencephalitis: case reports and review of the literature. Mov Disord. 1997;12(3):342-53.
5. Gutierrez J, Issacson RS, Koppel BS. Subacute sclerosing panencephalitis: an update. Dev Med Child Neurol. 2010;52(10):901-7.
6. Duncalf CM, Kent JN, Harbord M, et al: Subacute sclerosing panencephalitis presenting as schizophreniform psychosis. Br J Psychiatry 1989; 155:557–59
7. Jähnel M.Paranoid-hallucinatory psychosis as primary manifestation of subacute sclerosing panencephalitis (SSPE) in a 19-year-old man. Psychiatr Prax. 2003;30 Suppl 2:70-2.
8. Kayal M, Varghese ST, Balhara YP. Psychiatric manifestation of SSPE. J Neuropsychiatry Clin Neurosci. 2006;18(4):560.
9. Baran Z, Hanağasi H, Uçok A. An unusual late presentation of subacute sclerosing panencephalitis with psychotic symptoms. J Neuropsychiatry Clin Neurosci. 2010;22(1):123.
10. Chakor RT, Santosh NS. Subacute sclerosing panencephalitis presenting as rapidly progressive young-onset dementia. J Pak Med Assoc. 2013;63(7):921-4.
11. Kartal A, Kurt AN, Gürkas E, Aydın K, Serdaroglu A. Subacute Sclerosing Panencephalitis Presenting as Schizophrenia With an Alpha Coma Pattern in a Child.J Child Neurol. 2013 Oct 18. doi: 10.1177/0883073813507484

How to cite this article:

Altunkaynak Y, Yıldırım Z, Ertem DH, Dirican AC, Baybaş S. Late Onset Subacute Sclerosing Panencephalitis: Presenting Psychosis. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 2): 220-2.